

## 発育性股関節形成不全の予後推定因子の解明と股関節発育状態の評価

著者	塚越 祐太
発行年	2018
学位授与大学	筑波大学 (University of Tsukuba)
学位授与年度	2017
報告番号	12102甲第8709号
URL	<a href="http://doi.org/10.15068/00152489">http://doi.org/10.15068/00152489</a>

筑 波 大 学

博 士 （ 医 学 ） 学 位 論 文

発育性股関節形成不全の  
予後推定因子の解明と  
股関節発育状態の評価

2 0 1 7

筑波大学大学院博士課程人間総合科学研究科

塚越祐太

## 目次

第1章 序章.....	1
1.1 用語の変遷.....	1
1.2 DDH の疫学 .....	2
1.3 診断.....	2
1.3.1 リスクファクター.....	2
1.3.2 臨床症状 .....	2
1.3.3 画像診断 .....	3
1.3.3.1 総論.....	3
1.3.3.2 各論.....	6
1.4 治療.....	9
1.4.1 装具による整復：Riemenbügel 装具 .....	9
1.4.2 非観血的整復 .....	9
1.4.3 観血的整復.....	10
1.4.4 補正手術（骨盤骨切り術） .....	10

第2章 研究の課題と目的 .....	12
2.1 3D-MRI による脱臼整復前の骨頭形態および脱臼整復後の形態変化の解析 ...	12
2.2 MRI による軟骨性臼蓋と関節唇の評価と予後予測 .....	13
2.3 DDH 治療中に生じた大腿骨頭壊死の放射線学的予後予測 .....	13
第3章 倫理的配慮 .....	14
3.1 研究の対象となる個人の人権擁護 .....	14
3.2 倫理委員会承認 .....	14
第4章 MRI による DDH の骨頭軟骨および臼蓋軟骨の形態評価(研究 1, 2) .....	15
4.1 3D-MRI による脱臼骨頭の形態解析および整復後の形態変化(研究 1) .....	15
4.1.1 対象と方法 .....	15
4.1.2 結果 .....	17
4.1.2.1 脱臼整復前の骨頭形態(研究 1-1) .....	17
4.1.2.2 脱臼整復前後の骨頭形態の変化(研究 1-2) .....	19
4.1.3 考察 .....	22
4.1.4 小括 .....	25
4.2 MRI による軟骨性臼蓋と関節唇の評価と予後予測(研究 2) .....	25

4.2.1 対象と方法.....	25
4.2.2 結果.....	28
4.2.3 考察.....	30
4.2.4 小括.....	33
<b>第5章 DDH 治療中に生じた大腿骨頭壊死の放射線学的予後予測(研究3) .....</b>	<b>34</b>
5.1 対象と方法 .....	34
5.2 結果 .....	39
5.3 考察 .....	42
5.4 小括 .....	44
<b>第6章 研究の限界 .....</b>	<b>45</b>
<b>第7章 総括 .....</b>	<b>46</b>
7.1 3D-MRI による脱臼整復前の骨頭形態および脱臼整復後の形態変化の解析...	46
7.2 MRI による軟骨性臼蓋および関節唇の評価と予後予測.....	46
7.3 DDH 治療中に生じた大腿骨頭壊死の放射線学的予後予測.....	47
<b>第8章 結論.....</b>	<b>48</b>
参考文献 .....	49

## 略語一覽

AI	acetabular index
ASA	acetabular sector angle
AHI	acetabular-head index
AVN	avascular necrosis of the femoral head
CEA	center-edge angle
CHDD	center-head distance discrepancy
DDH	developmental dysplasia of the hip
MRI	magnetic resonance imaging

## 第1章 序章 ～発育性股関節形成不全～

### 1.1 用語の変遷

「発育性股関節形成不全」という用語は「整形外科学用語集」の第6版(2006年)から収載されており、股関節脱臼、股関節亜脱臼、寛骨臼形成不全(臼蓋形成不全)を含めた広いスペクトラムな用語である。その中でも股関節脱臼は「先天性股関節脱臼」という名称で広く知られていたが、出生後の生育環境によっても先天性股関節脱臼と同様な股関節脱臼が生じることが知られてきたため<sup>1-3</sup>、「先天性股関節脱臼」という用語は「発育性股関節形成不全」に置き換わってきている。しかし、脱臼、亜脱臼、寛骨臼形成不全はそれぞれ予後や治療成績が異なり<sup>4-6</sup>、特に小児期はそれぞれ別に論じる必要がある。そこで、本論文中で主に扱う乳児期の股関節脱臼を「発育性股関節形成不全(developmental dysplasia of the hip, DDH)」と表記し、股関節亜脱臼は「亜脱臼」、寛骨臼形成不全は「寛骨臼形成不全」と表記する(図1)。

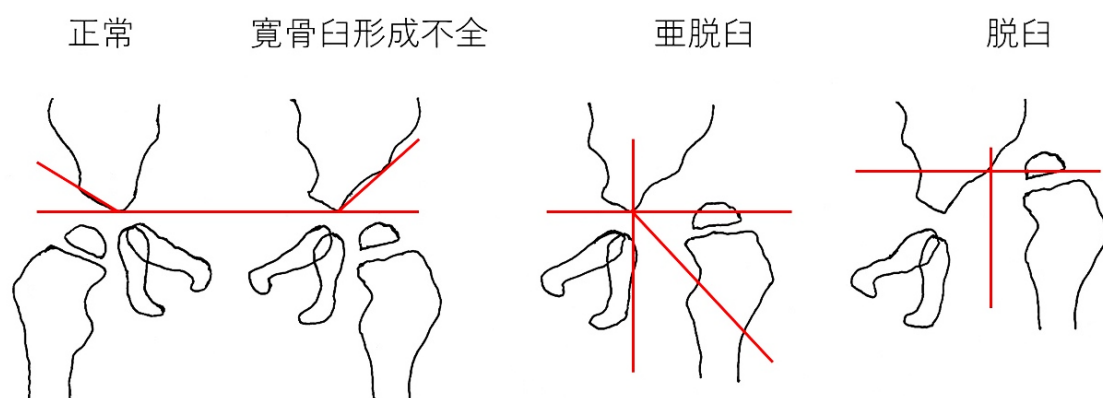


図1 寛骨臼形成不全では浅く臼蓋の角度がより上方に向かっている。亜脱臼では大腿骨頭の外方化が見られる。脱臼では大腿骨頭が寛骨臼に接していない。



## 1.2 DDH の疫学

紀元前 400 年ころ，ギリシャの Hipcrates によって記載が始まっており，整形外科領域の中でも歴史の長い疾患である<sup>7</sup>．かつては発生率 1~3%と高頻度な疾患であり<sup>8</sup>，長年にわたって整形外科の三大疾患の 1 つとして扱われてきた．しかし，日本では 1970 年ころからの育児指導を中心とした脱臼発生予防活動によりその発生率は 1/5~1/10 程度まで低下し<sup>9</sup>，現在は概ね 0.1~0.3%程度の発生頻度の疾患となっている．また，発生率は人種差や生活習慣の差も影響することが明らかになっている<sup>10</sup>．

## 1.3 診断

### 1.3.1 リスクファクター

(1)骨盤位分娩，(2)女児，(3)家族歴陽性などがリスクファクターとして挙げられている．Lehman ら<sup>11</sup>は meta-analysis からそれぞれのオッズ比を骨盤位分娩 5~7，女児 4~5，家族歴 2~3 と報告している．これらに臨床所見としての click sign，開排制限，大腿皮膚皺の左右差などを加えて，乳児健診時にスコアリングしてハイリスク群を抽出する試み<sup>12</sup>なども日本では行われている．

### 1.3.2 臨床症状

臨床スクリーニングでは Ortolani テスト<sup>13</sup>および Barlow テスト<sup>14</sup>で click sign を確認し，股関節の脱臼や不安定性を確認する．Ortolani テストでは屈曲させた股関節を外転させていった時に脱臼している大腿骨頭が臼蓋に整復されて click が誘発される．Barlow テスト

では股関節を内転位にしながら大腿骨の長軸長軸方向に力を加えることで潜在的な大腿骨頭の亜脱臼もしくは後方脱臼を検出が検出できる。一方で、click sign が誘発されない脱臼もあり、Suzuki<sup>15</sup>が超音波所見をもとに DDH を 3 つに分類したもののうちの、Type C が click sign 陰性の脱臼に該当する。

股関節開排制限も DDH を示唆する所見であり、脱臼に対する感度は 69%、特異度は 45% と報告されている<sup>16</sup>。開排制限が認められても超音波検査で正常であれば、特に治療介入を行わなくてもその後平均 5 年間の追跡調査で全例正常股関節に発育したと報告されており<sup>16</sup>、臨床所見だけではなく、画像診断も組み合わせて適切な治療介入を行うことが肝要である。

鼠径部の皮膚溝の非対称も DDH を示唆する体表所見であり、特異度は低いが感度は高い。Ando ら<sup>17</sup>は乳児 2111 例を検討し、499 例に鼠径部の皮膚溝の非対称があり、この中に脱臼もしくは亜脱臼症例がすべて含まれていたと報告しており、スクリーニングとして有用な所見である。

このような異常な臨床所見が 1 つでも確認されている股関節における DDH 発生率は、所見を 1 つも認めない股関節における発生率の約 16 倍と報告されている<sup>18</sup>。

### 1.3.3 画像診断

#### 1.3.3.1 総論

スクリーニング検査としては単純 X 線写真と超音波検査が主に用いられている。生後 6 ヶ月くらいまでは大腿骨近位骨端核が出現していないことも多く<sup>19</sup>、この時期の単純 X 線写真における所見のみでは確実な診断を行うことは困難であり、臨床所見との組み合わせが必要である。超音波検査は被曝がない点で有用な検査であるが、生後 8 ヶ月以降は大腿

骨近位骨端核が大きくなる<sup>19</sup> ために、それよりも深部にある寛骨臼の形態評価が困難となる。

乳児期の単純 X 線写真では Tönnis の分類<sup>20</sup> が汎用されている (図 2)。これは骨端核の中心が寛骨臼に対してどこに位置するかで分類したもので、DDH の重症度と相関する。しかし、骨端核出現前では評価が困難であるため、International Hip Dysplasia Institute が骨端核出現前でも可能な分類を提唱し、検者間誤差も少なく、有用であると報告されている<sup>21</sup> (図 3)。その他、小児股関節 X 線写真の読影上重要な線として Shenton 線や Calvé 線があり、この連続性の乱れは股関節の脱臼・亜脱臼を示している。

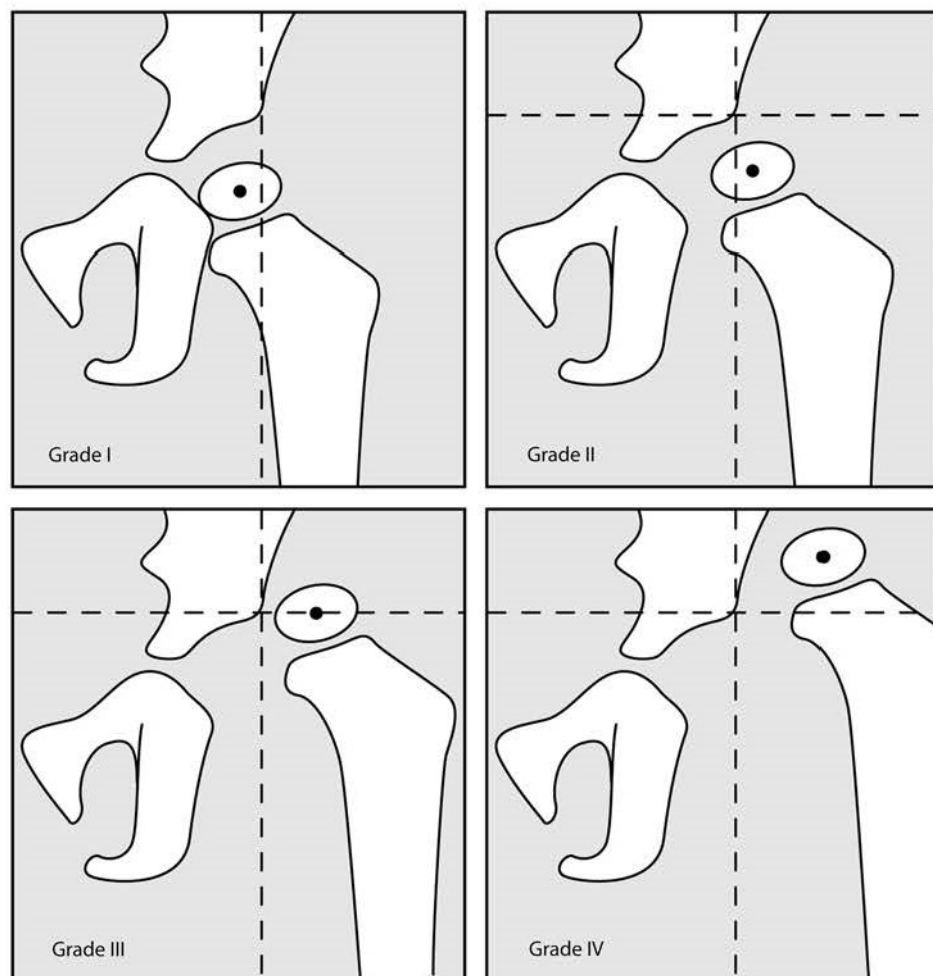


図 2 Tönnis の分類. 骨端核の中心の位置により分類され、求心性が不良であるほど Grade が上がる. (文献 20 より引用)

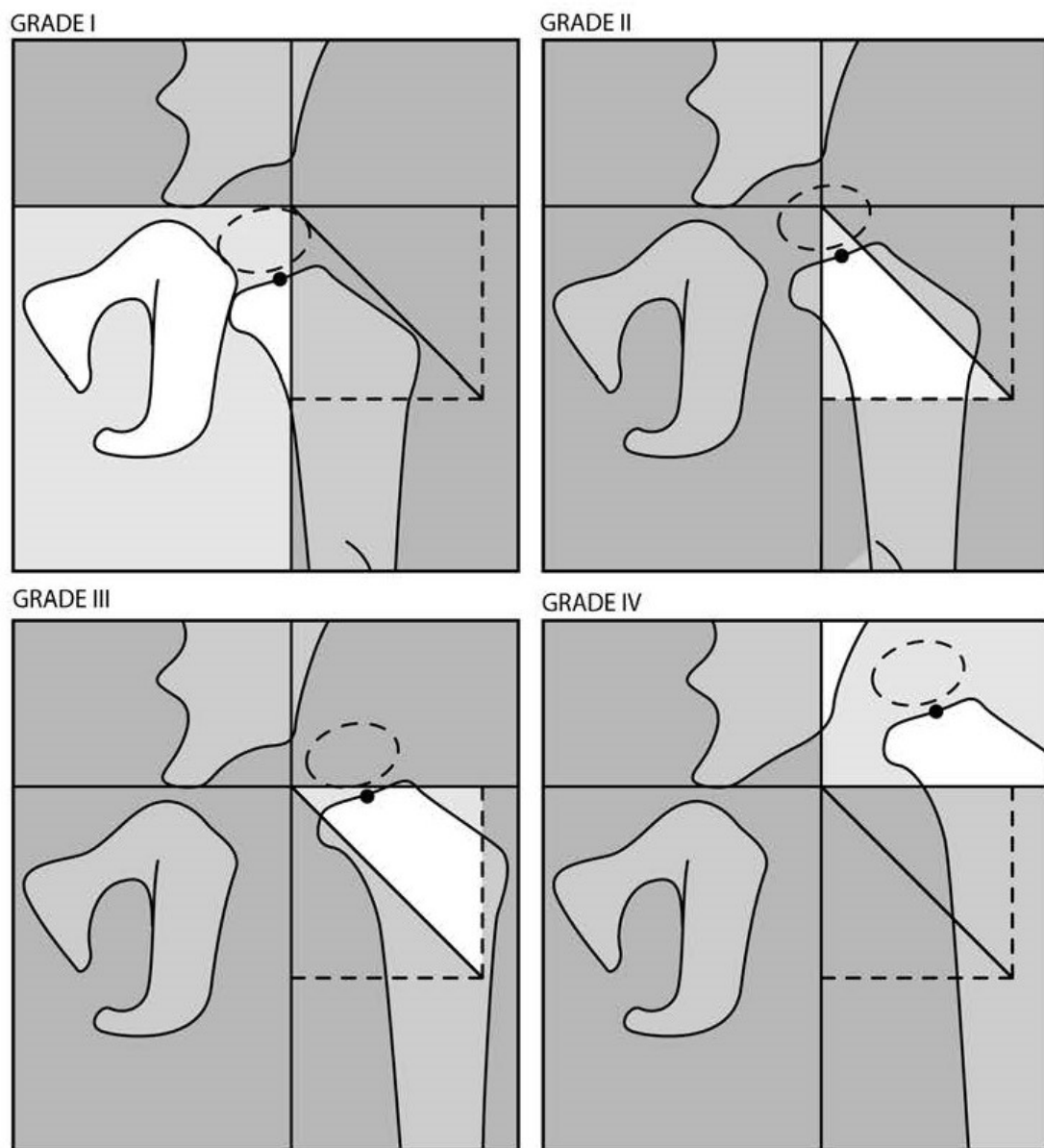


図3 International Hip Dysplasia Institute による分類. 大腿骨近位骨幹端の中央点の位置で分類され, 求心性が不良であるほど Grade が上がる. (文献 21 より引用)

超音波検査としては乳児を側臥位とし, 股関節伸展位で側方からプローブを当てる Graf 法<sup>22</sup>が汎用されている. これは脱臼だけでなく, 寛骨臼形態も評価できる点で有用である

が、プローブを当てる角度によって計測値が大きく変化してしまう欠点も示されており<sup>23</sup>、手技の精通が必要である。また、乳児を仰臥位とし、股関節開排位で前方からプローブを当てる方法も報告されている<sup>15,24,25</sup>。股関節開排位を維持するギプス固定や装具療法中でも股関節の状態を確認できるため、治療中の評価としても使われている。

関節造影、コンピュータ断層撮影(computed tomography, CT)、磁気共鳴画像法(magnetic resonance imaging, MRI)は動的評価、三次元的評価、軟部組織の評価などが可能である点で優れているが、侵襲的な検査であるため、脱臼整復困難例や脱臼整復後の遺残性亜脱臼・遺残性寛骨臼形成不全症に対して実施されることが多い。非観血的整復時に関節造影検査を行って求心性を確認することは重要であり、初期整復位が良好(過開排することなく安定し、骨頭内側部の造影剤貯留が7mm以下)であれば94%が予後良好であったのに対し、初期整復位が不良だった場合は21%のみが許容範囲の予後になったと報告されている<sup>26</sup>。小児に対する関節造影検査は全身麻酔が必要であり、空気塞栓<sup>27</sup>などの合併症も報告されているため、実施時には注意を要する。非観血的整復時の整復位の確認は軸位断像が有用であり、CTやMRIによる評価の有用性も報告されている<sup>28-30</sup>。

#### 1.3.3.2 各論

放射線学的な股関節発育の評価として、様々な計測方法が存在している。その中でも汎用性が高く、本論文中でも使用している計測方法に関して評価法と計測値の解釈を図4から7に示す。

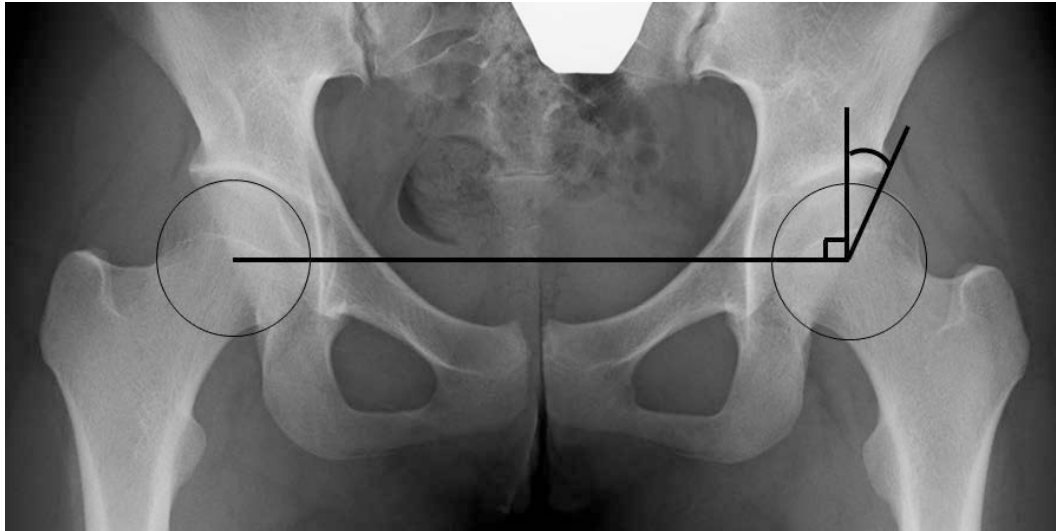


図4 Center-edge angle (CEA)<sup>31</sup>. 両大腿骨頭中心を結ぶ線を基準線とし、骨頭を通る垂線と骨頭と臼蓋外側縁を結ぶ線とのなす角度。数値が小さいほど寛骨臼の被覆が不良である。

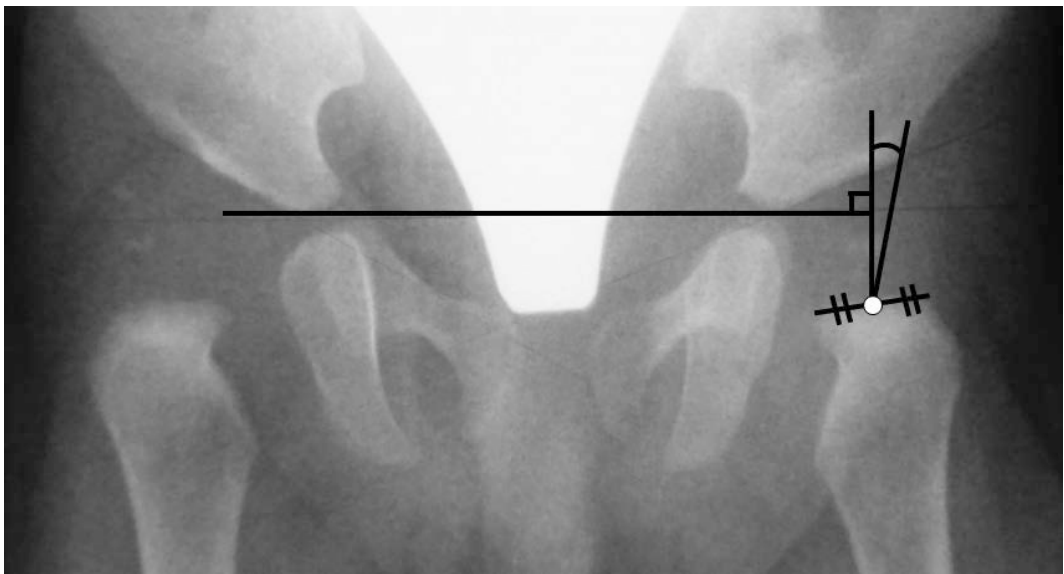


図5 O-edge angle (OEA, OE 角)<sup>32</sup>. Hilgenreiner 線(Y 軟骨を結んだ線)<sup>33</sup>を基準とし、大腿骨近位骨幹端の midpoint O を通る垂線と臼蓋外側縁を結ぶ線とのなす角度。数値が小さいほど寛骨臼の被覆が不良である。

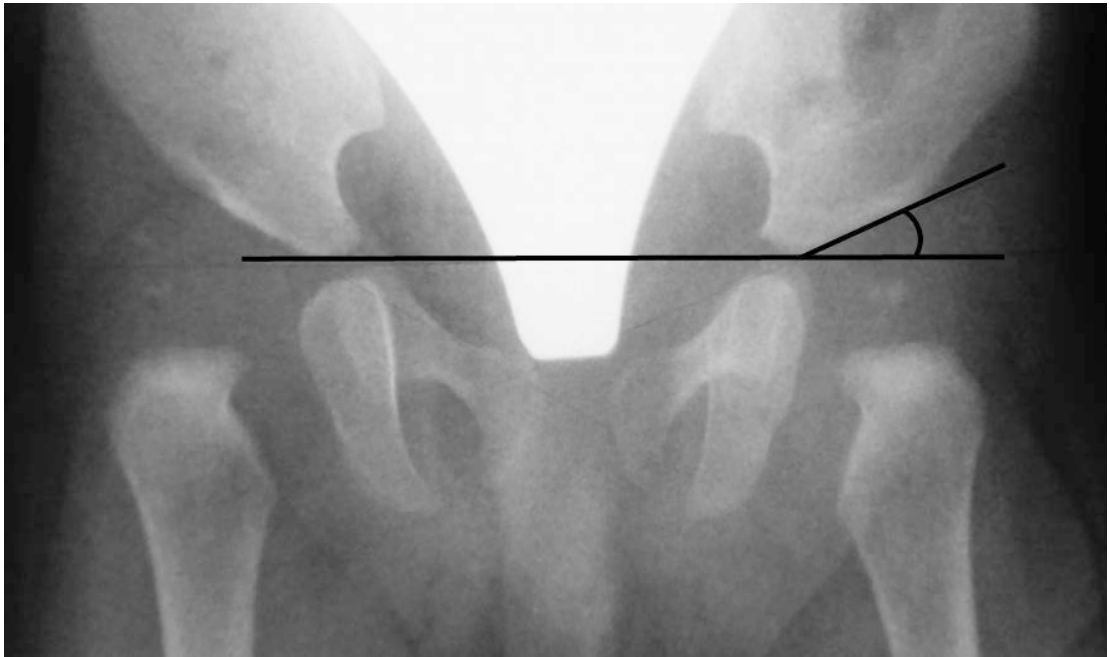


図6 Acetabular index (AI, 臼蓋角)<sup>34</sup>. Hilgenreiner 線と臼蓋とのなす角度.  
数値が大きいほど臼蓋の形成が不良である.

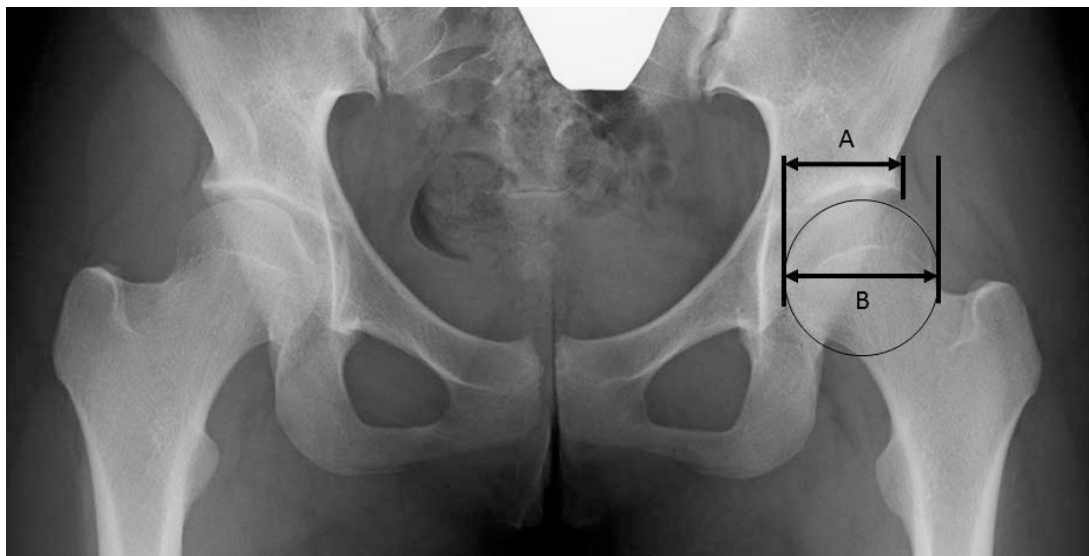


図7 Acetabular-head index (AHI)<sup>35</sup>. 骨頭横径に対する寛骨臼の被覆の程度  
( $A/B \times 100$ )を示す. 数値が小さいほど寛骨臼の被覆が不良である.

## 1.4 治療

### 1.4.1 装具による整復：Riemenbügel 装具

寝返りが始まる前の乳児期 DDH に対しては Riemenbügel 装具(Pavlik harness)<sup>36</sup>による整復が第一選択として用いられることが多い。考案者である Pavlik による報告<sup>37</sup>では整復率は 84.1%である。多くの施設で追試され、整復率は概ね 80~95%程度とされている<sup>38-40</sup>。合併症として大腿骨頭壊死(avascular necrosis of the femoral head, AVN)があげられ、その発生率は 5~20%である<sup>39,41</sup>。

装着期間に関しては一定の見解はなく、「小児股関節研究会リーメンビューゲル治療に関するワーキンググループ」が作成したマニュアル<sup>38</sup>では装着期間の目安を 3~4 カ月間としているが、生後 1~6 カ月の乳児に対する装着期間は整復後 6 週間と記載された成書もある<sup>42</sup>。筑波大学では現在装着期間を 6 週間としており、短期成績ではあるが比較的良好な成績が得られている<sup>43</sup>。

### 1.4.2 非観血的整復

主に全身麻酔下に行われる。徒手整復により整復され、股関節の安定性が得られればギプス固定を行う。かつては股関節伸展内旋位(Lange 肢位)でギプス固定をしていた時代もあったが、AVN が高率に生じることが分かり<sup>44</sup>、現在は開排位でギプス固定されている。股関節の安定性は整復位が維持できる股関節開排角度で評価され、Ramsey ら<sup>45</sup>は整復位を維持するための開排角度 70° 未満が safe zone であると報告している。非観血的整復は AVN の発生率が比較的高く、4~60%と報告により差はあるが決して稀な合併症ではない<sup>26,46-52</sup>。AVN の発生を抑制するために術前に股関節の牽引を行うこともあるが、効果は一定してし



ない<sup>53</sup>。非観血的整復時に内転筋腱切りや腸腰筋解離を同時に行い、AVN の発生を抑制した良好な成績も報告されている<sup>54</sup>。

本邦では小児病院を中心に牽引による整復も行われており、やや長期の入院を要するものの、整復率や合併症発生率に関して良好な成績が得られている<sup>55,56</sup>。

#### 1.4.3 観血的整復

装具療法や非観血的整復が不能な場合や年長児(歩行開始年齢以降に発見された例)に対しては観血的整復が行われる。古くは内側アプローチ(Ludloff 法)<sup>57</sup>が行われてきたが、AVN の発生率が高いことや求心性を得にくい点などで適応が限られてきており、現在では前方アプローチ<sup>58</sup>が広く行われている。一方で、本邦では側方から侵入していく広範囲展開法(田辺法)<sup>59</sup>も行われており、年長児に対しても従来法に勝る成績が報告されている<sup>60</sup>。最近の新しい術式として、関節鏡視下の整復術も試みられており<sup>61-63</sup>、長期成績の報告が待たれている。

#### 1.4.4 補正手術(骨盤骨切り術)

股関節脱臼整復後、遺残性亜脱臼や遺残性寛骨臼形成不全に対しては大腿骨骨切り術や骨盤骨切り術による補正手術が行われ、その適応は単純 X 線所見により決定されることが一般的である<sup>32,64,65</sup>。補正手術は小児期特有の可塑性を利用するため、低侵襲で大きな効果が得られる点が特徴である。一方で、その手術適応は就学前頃までに判断する必要がある<sup>66</sup>、過剰診療を最小限にするためには慎重な判断が必要となる<sup>67</sup>。種々の術式が存在するが、Salter 骨盤骨切り術<sup>68</sup>が最も汎用されており、長期成績も良好である<sup>69</sup>。Salter 法の原法<sup>68</sup>では大きな移植骨を要するが、これを改良し、移植骨を要さず、低侵襲でかつ骨盤の変形を

生じにくい新たな術式も行われている<sup>70-72</sup>(図4).



図8 右 DDH. 遺残性寛骨臼形成不全に対して5歳時に補正手術が行われている. 骨成熟時には良好な股関節に発育している.

## 第2章 研究の課題と目的

### 2.1 3D-MRI による脱臼整復前の骨頭形態および脱臼整復後の形態変化の解析

DDH では脱臼骨頭を整復することが治療の第一歩であり、その後は小児期の股関節を正常な発育へと導くために必要に応じた追加治療を行う。AVN や遺残性寛骨臼形成不全が生じて小児期には疼痛や跛行を呈することはほとんどなく、骨頭や寛骨臼の発育状況は画像検査で評価していく必要がある。求心性の低下や AVN による骨頭変形が生じた場合は、骨頭と寛骨臼の適合性を改善させるために補正手術が行われることがある。乳幼児期の股関節は軟骨成分が豊富であり、単純 X 線写真での評価では十分な情報が得られない。幼児期 DDH の軟骨性股関節形態からその後の股関節発育を予測する上で MRI の有用性が報告されている<sup>73-77</sup>。

DDH の幼児期の大腿骨頭の形態学的研究では、MRI を使用して球形度が低いことが報告されている<sup>78</sup>。一方で、成人期の DDH に関しては低い球心性や寛骨臼形成不全の場合に球形度が低いことが報告されている<sup>79,80</sup>。しかし、脱臼整復前の骨頭形態を三次元的に評価し、さらにその整復後の形態変化を縦断的に評価した報告はない。

ペルテス病では骨頭の真球性が股関節の機能予後に関連することが知られている<sup>81-83</sup>。DDH の治療において生じた大腿骨頭壊死(avascular necrosis of the femoral head, AVN)では、幼児期に放射線学的な変形が見られ、それが骨成熟時の骨頭形態と関連することも報告されている<sup>84</sup>。したがって、乳幼児期骨頭形態を評価することは重要であると考えられる。

研究 1 では脱臼整復前と整復後に 3D-MRI を撮像できていた症例を対象とし、脱臼整復前の骨頭形態を健側と比べて三次元的に評価し、さらに脱臼整復後に生じる形態変化を縦断的に評価した。

## 2.2 MRI による軟骨性白蓋および関節唇の評価と予後予測

DDH の治療において、遺残した寛骨臼形成不全に対しては就学前頃を目安に補正手術をすることが推奨されている<sup>66</sup>。脱臼が整復された後に行われる可能性のある大きな治療のひとつがこの就学前の補正手術であり、治療者も親もこの手術の必要性に頭を悩ませながら幼児期 DDH の股関節発育を見守っていくことになる。

DDH 治療において、将来の股関節形態を予測する目的で小児期に MRI による軟骨性白蓋および関節唇を評価することの有用性が報告されている<sup>73,74,76,77,85</sup>。軟骨性白蓋は 2 歳頃までに一定の発育状態に至ることが明らかにされているため<sup>86</sup>、筑波大学では DDH の治療評価として 2 歳時に MRI を撮像してきた。

研究 2 では脱臼整復後、2 歳頃の MRI から得られた軟骨性白蓋や関節唇の所見から、補正手術の必要性に関して最終的な判断がなされる 6 歳頃の股関節発育状況との関連を解析した。

## 2.3 DDH 治療中に生じた大腿骨頭壊死の放射線学的予後予測

AVN は DDH の治療中に生じる一般的な合併症であり、その発生率は 6-48%程度と報告されている<sup>87-89</sup>。AVN が生じると大腿骨頭が変形するため寛骨臼との適合性が悪くなり、股関節発育に悪影響を及ぼす。Salter ら<sup>90</sup>は放射線学的な AVN の早期の診断基準を報告し、Kalamchi ら<sup>91</sup>は AVN によって生じた骨成熟時の大腿骨近位部の形態変化と機能予後との関連を報告している。それらは臨床現場で広く用いられているが、早期の診断基準である Salter 基準と、機能予後と関連のある骨成熟時の Kalamchi 分類の相関を明らかにした報告はない。研究 3 では AVN を生じた幼児期 DDH の長期予後をより正確に予見するため、幼児期の Salter 基準と骨成熟時の Kalamchi 分類との相関を検討した。

### 第3章 倫理的配慮

#### 3.1 研究の対象となる個人の権利擁護（研究1～4）

対象者の個人データは研究者が管理し、公表されるデータにおいては個人の特定ができないように配慮した。

#### 3.2 倫理委員会承認

研究1～3は筑波大学附属病院臨床研究倫理委員会の承認 臨床研究題目（H21-362）を得て行われた。

## 第4章 MRI による DDH の骨頭軟骨および臼蓋軟骨の形態評価(研究 1, 2)

### 4.1 3D-MRI による脱臼骨頭の形態解析および整復後の形態変化(研究 1)

#### 4.1.1 対象と方法

2008 年から 2015 年に初診となった奇形性脱臼を除く片側 DDH のうち, Riemenbügel 装具着用後 2 週間以内に整復が得られず, 整復阻害因子の検索として 3D-MRI が撮像できていた 21 例 21 股(男児 3 人, 女児 18 人, 右 3 股, 左 18 股)を対象とし, 脱臼整復前の骨頭形態を評価した(研究 1-1). この 21 例のうち整復後 1 年の単純 X 線で AVN の所見をみとめた例を除外し, 整復後 2 歳頃にも 3D-MRI を撮像できていた 10 例(全例女児, 右 1 股, 左 9 股)に関して脱臼整復前後の骨頭形態の変化を比較した(研究 1-2).

1.5Tesla または 3.0Tesla の MRI 装置(Phillips Achieva®; Phillips Healthcare, The Netherlands)を使用し, spin echo 法, 0.8mm スライス厚(ギャップなし), プロトン強調像(TE; about 18 ms, TR; 1,200 ms)の条件で 3D volume data を取得した. MRI 撮像はトリクロホスナトリウム(80 mg/kg 体重)を使用して鎮静下に行った.

3D 画像解析ソフト(Mimics 19.0; Materialise NV, Belgium)を使用し, 大腿骨頸部軸および大腿骨軸を基準に軸位断像, 冠状断像, 矢状断像を再構築した. Clock system を使用し, 軸位断像では前方を 12 時, 内側を 3 時, 冠状断像では上方を 12 時, 内側を 3 時, 矢状断像では上方を 12 時, 前方を 3 時と定義した(図 9).

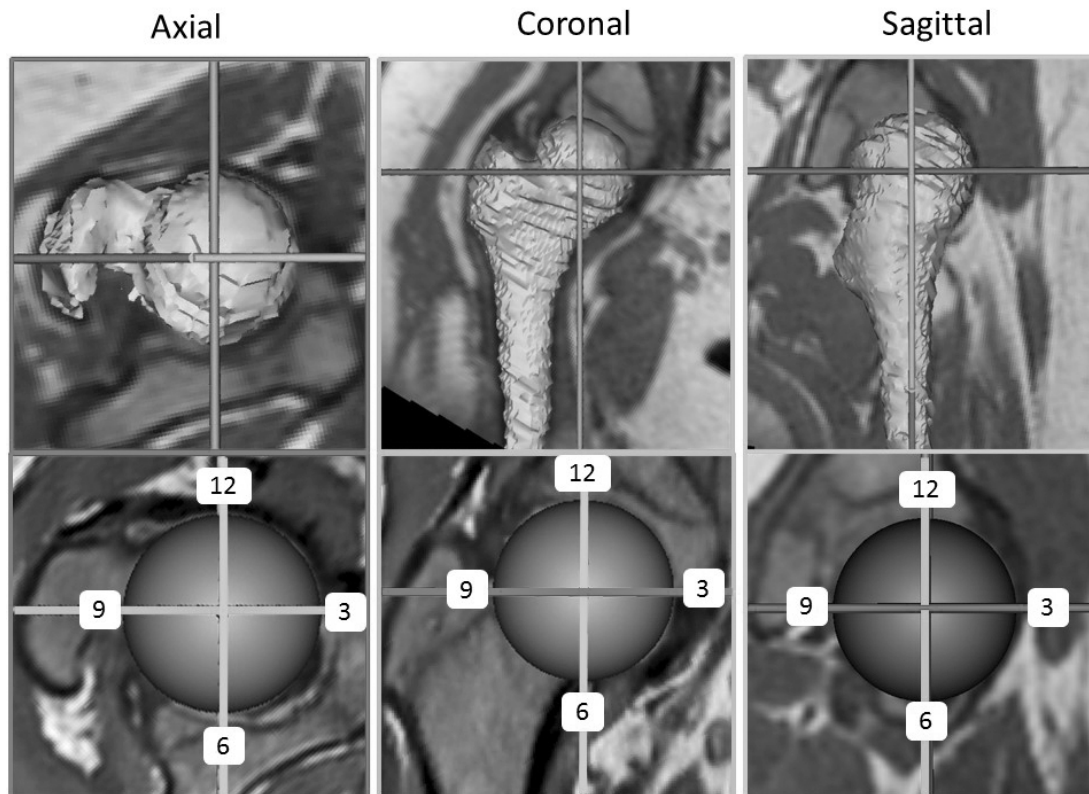


図9 3D-volume データからの再構築画像. 大腿骨骨軸と頸部軸を基準に軸位断像, 冠状断像, 矢状断像を作成した. 大腿骨頭軟骨を内包する最小の球を描き, その中心を骨頭中心, 球の直径を骨頭径とした.

大腿骨頭軟骨を全て包含する最小の球を作成し, その径を骨頭径, 中心を骨頭中心と定義した. 骨頭中心を通る軸位断像, 冠状断像, 矢状断像の各平面において, 骨頭中心から骨頭軟骨表面までの距離を  $30^{\circ}$  ごとに計測した. 真球性の評価のために骨頭中心から骨頭軟骨表面までの距離を骨頭半径で割った比率で評価し, 脱臼整復前の骨頭形態に関しては健側と患側を比較し, 脱臼整復前後の形態変化に関しては患側の整復前と整復後を比較した(図10).

統計学的検討は SPSS 23.0J (IBM Inc., Chicago, IL)を用いて, 骨頭径の比較においては t 検定を, 真球性の比較に関しては二元配置反復測定分散分析および Bonferroni 法による事

後検定を行った。脱臼整復前の 21 例の解析では有意水準は 0.01 とした。脱臼整復前後で比較した 10 例の解析では有意水準を 0.05 とした。

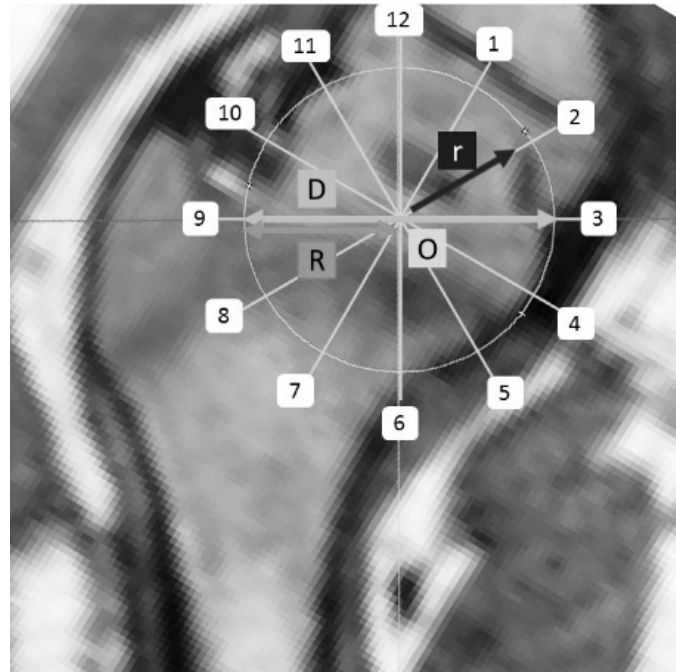


図 10 骨頭中心から軟骨表面までの距離(r)を 30° ごとに計測

#### 4.1.2 結果

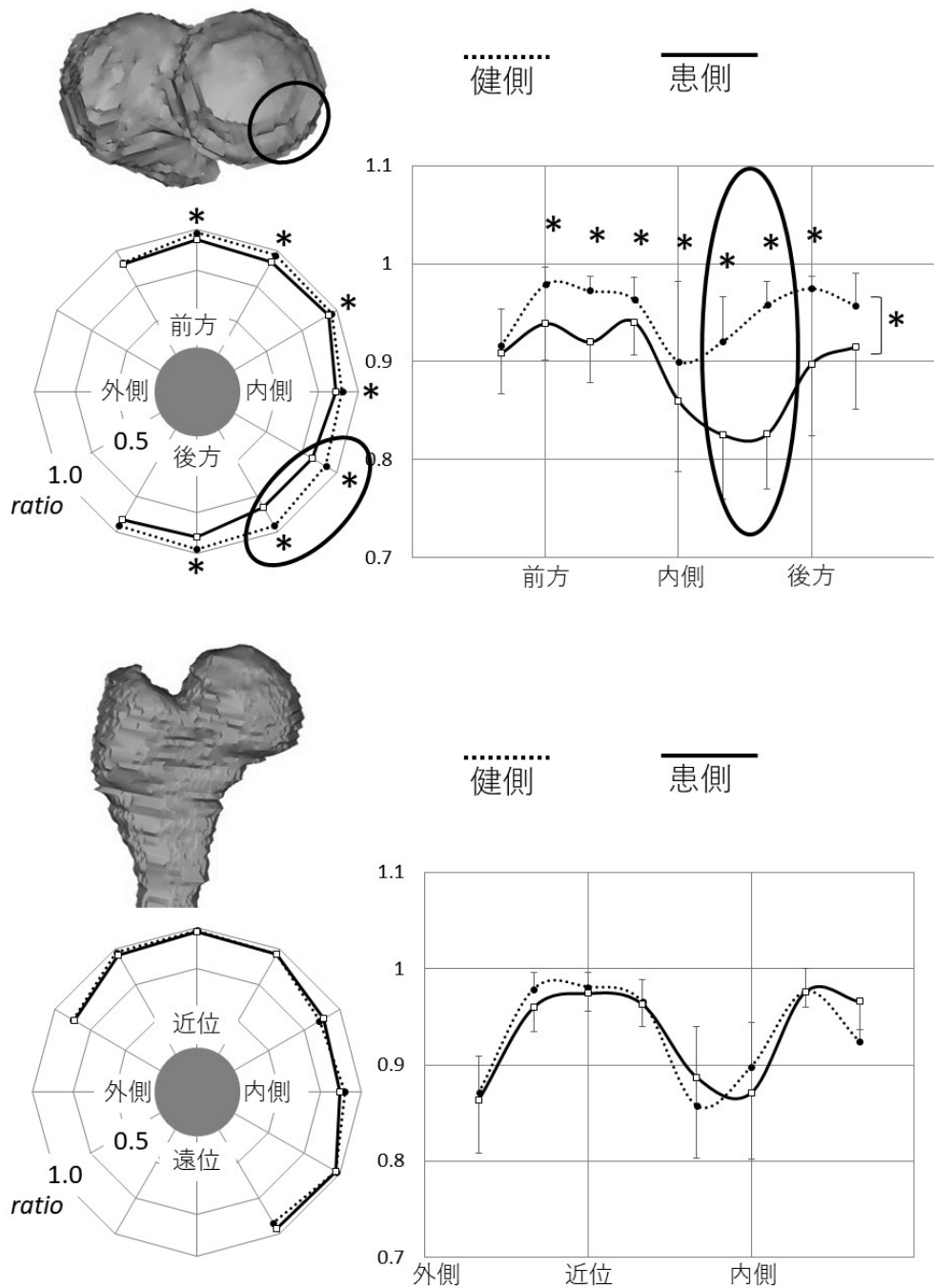
##### 4.1.2.1 脱臼整復前の骨頭形態(研究 1-1)

脱臼整復前の 3D-MRI は生後  $9 \pm 4$  カ月時に撮像されていた。骨頭径は健側  $21.4 \pm 1.8$  mm, 患側  $19.6 \pm 1.4$  mm であり, 患側が有意に小さかった( $p < 0.001$ ; paired t-test)。真球形に関しては, 中心から骨頭軟骨表面までの距離を半径で割った比を健側と比較し, 二元配置反復測定分散分析で軸位断像と矢状断像で有意差を認めた(軸位断像;  $p < 0.001$ , 冠状断像;  $p = 0.839$ , 矢状断像;  $p < 0.001$ ) (2-way repeated ANOVA)。軸位断像および矢状断像に関する事後検定では, 軸位断像では 12 時から 6 時, 矢状断像では 9 時から 11 時および 3 時の部位に有意差を認めた( $p < 0.01$ ; post-hoc analysis with Bonferroni correction)。特に, 1mm



以上の差に相当する 9%以上の差がある部位を検討すると、軸位断像では 4 時から 5 時、矢状断像では 10 時の部位の変形が目立っていた(図 11).

脱臼整復前の骨頭形態の特徴として、健側に比べて小さいこと、近位後方内側に変形が生じていることが明らかとなった。



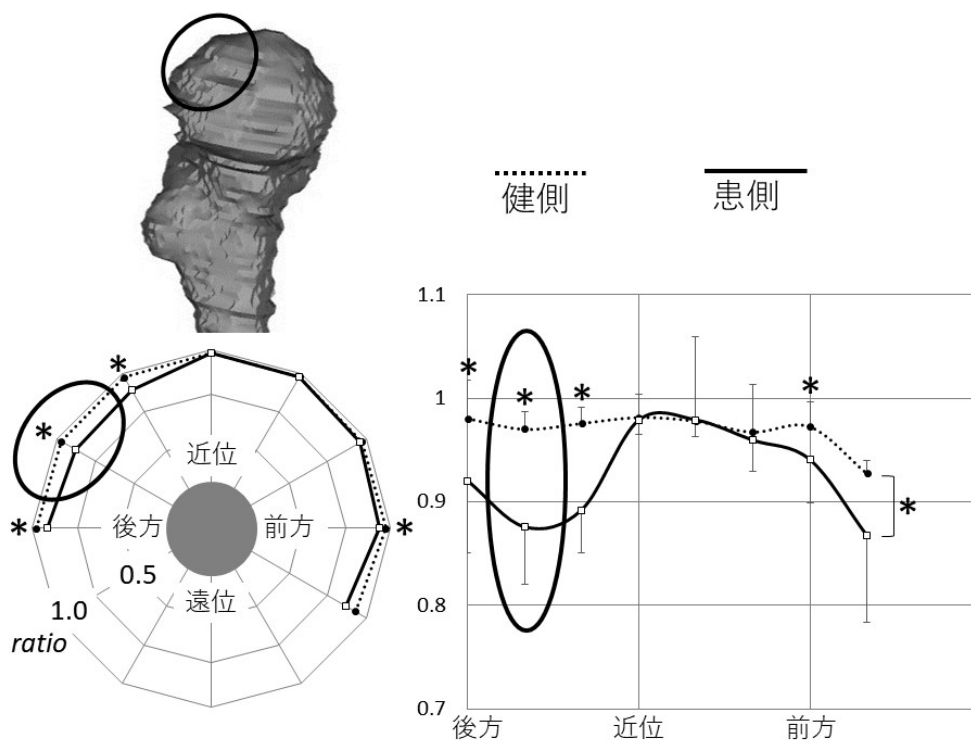


図 11 上から軸位断，冠状断，矢状断の解析グラフ．軸位断と矢状断では二元配置分散分析で有意な差が見られ，事後検定では広い範囲に差が見られた(\*;  $p < 0.01$ )．軸位断の 4 時から 5 時(後内側)，矢状断の 10 時(近位後方)に 9%以上の健患差が見られた．

#### 4.1.2.2 脱臼整復前後の骨頭形態の変化(研究 1-2)

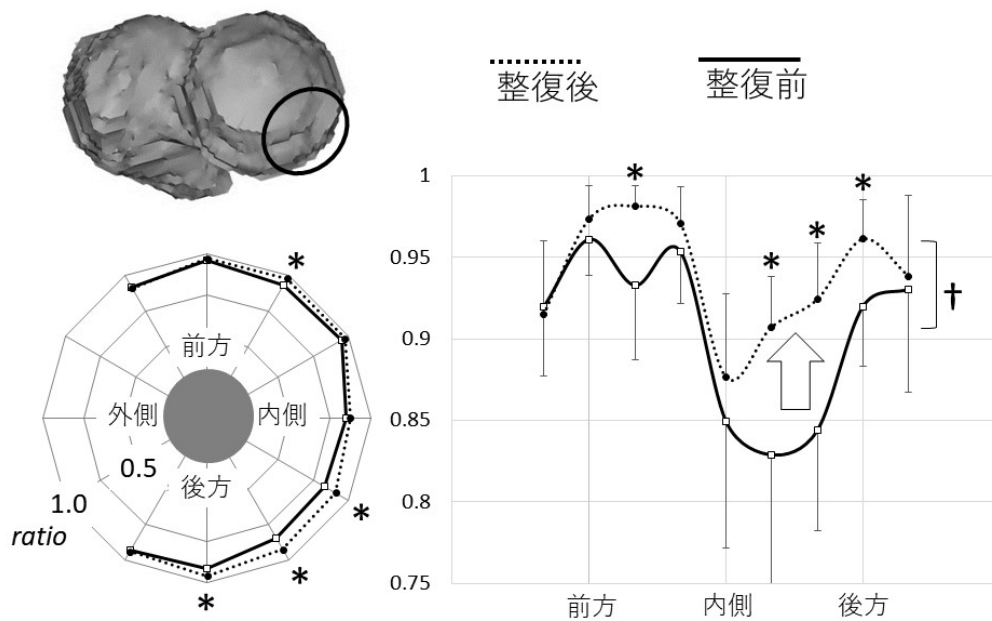
脱臼整復前の初回 MRI 撮像時月齢は  $8 \pm 4$  ヲ月，整復後の MRI 撮像時月齢は  $26 \pm 3$  ヲ月（整復後  $16 \pm 5$  ヲ月）であった．整復方法は Riemenbügel 装具 1 股，非観血的整復 8 股，観血的整復 1 股であった．Riemenbügel 装具によって整復された 1 股は，初回装着による整復失敗後に MRI が撮像され，2 回目の装具装着によって整復が得られていた．

整復前の骨頭径は健側  $20.9 \pm 1.4$  mm，患側  $19.7 \pm 1.0$  mm で，患側が有意に小さかったが( $p < 0.001$ )，整復後 2 歳時の骨頭径は健側  $26.0 \pm 1.5$  mm，患側  $27.3 \pm 1.7$  mm で，患

側が大きかった( $p=0.016$ ).

患側骨頭の脱臼整復前後の真球性の変化に関しては、二元配置反復測定分散分析で軸位断像と矢状断像に有意差を認めた(軸位断像;  $p=0.014$ , 冠状断像;  $p=0.677$ , 矢状断像;  $p=0.002$ ) (2-way repeated ANOVA). 軸位断像および矢状断像に関する事後検定では、軸位断像では4時から6時および1時に、矢状断像では9時から11時の部位に有意差を認めた( $p<0.05$ ; post-hoc analysis with Bonferroni correction)(図12).

脱臼整復後の骨頭は健側よりもやや大きくなり、整復前に見られていた骨頭の近位後方内側の変形は整復後にリモデリングしていた。



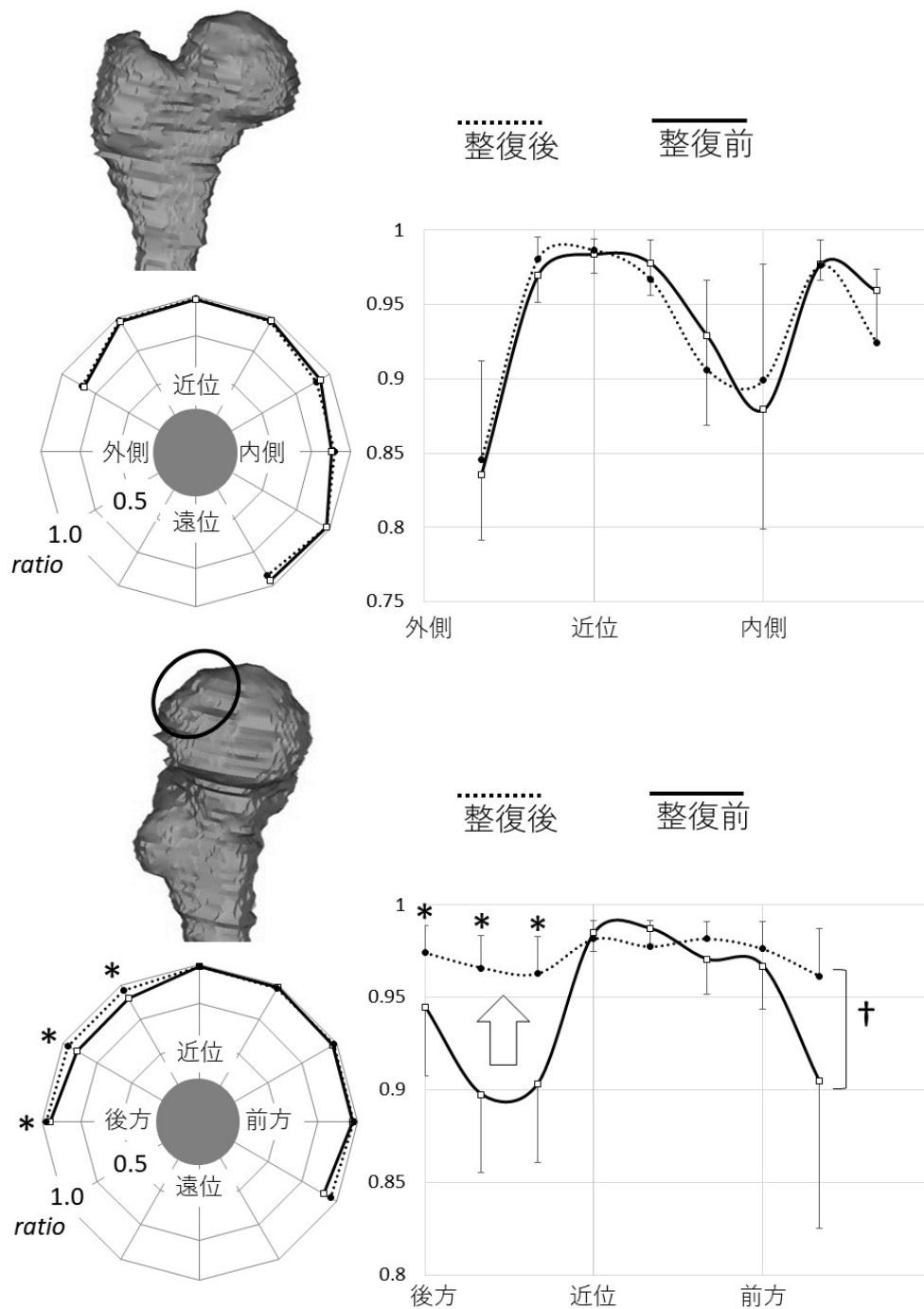


図 12 上から軸位断，冠状断，矢状断の解析グラフ．軸位断と矢状断では二元配置分散分析で有意な差が見られる(†;  $p < 0.05$ )．事後検定では軸位断の 1 時および 4 時から 6 時(後内側)，矢状断の 9 時から 11 時(近位後方)に差が見られ(\*;  $p < 0.05$ )，整復後は真球性が改善している．

#### 4.1.3 考察

単純 X 線像の解析で、寛骨臼形成不全の程度と骨頭変形の程度に関連があることが指摘されている<sup>92</sup>。しかし、乳児期 DDH の骨頭形態に関する報告はほとんどない。乳児期の股関節は単純 X 線像や CT で描写できない軟骨成分が多くを占めるため、それらの手法による詳細な形態評価は不可能である。一方で、MRI は軟骨形態の評価に有用であり、Eismann らは 3D-MRI を用いて平均年齢 2.3 歳の腕神経叢損傷の幼児の肩甲上腕関節の軟骨形態を三次元的に解析し、その特徴を報告している<sup>93</sup>。

脱臼整復前の骨頭は健側に比べて有意に小さかった。Fukiage ら<sup>94</sup>は亜脱臼の骨頭よりも脱臼骨頭の方がより小さいことを報告している。また、Sankar ら<sup>95</sup>は DDH 整復前の関節造影 X 線写真を評価し、患側骨頭は健側に比べて小さいことを報告しており、本研究結果と同様である。

脱臼整復後、2 歳頃の評価では患側骨頭の方が大きい結果であった。DDH の観血的整復では巨大骨頭が出現することが報告されている<sup>96,97</sup>。研究 1-2 では 10 股中 1 股が観血的整復を受けており、この症例に巨大骨頭が出現していた。ただし、それ以外の 9 股に関しては健側患側同等の大きさであり、観血的整復術を受けていた 1 股の結果が骨頭の大きさの平均の差に影響を与えた可能性がある。

DHH 脱臼整復前の骨頭の真球性に関しては、Sankar ら<sup>95</sup>は関節造影 X 線写真で、Druschel ら<sup>78</sup>は MRI 冠状断で評価し、脱臼骨頭は真球性が低いと報告しているが、ともに二次元的な評価にすぎない。本研究から脱臼骨頭の近位後方内側に変形が生じていることが明らかとなった。Siffert<sup>98</sup>は DDH の股関節発育において骨頭と臼蓋の正常な成長のためには“companion coaptation (関節面同士の密着)”が大切であると述べており、O'Brien ら<sup>99</sup>も成人後に見つかった DDH 症例の報告の中でその理論を支持している。DDH は関節包内脱臼であり、脱臼骨頭は臼蓋には接していないが前方部分が関節包に密着しているため

にこの部分の発育は保たれており，近位後方内側に発育障害が生じたものと考えられる（図 13）.

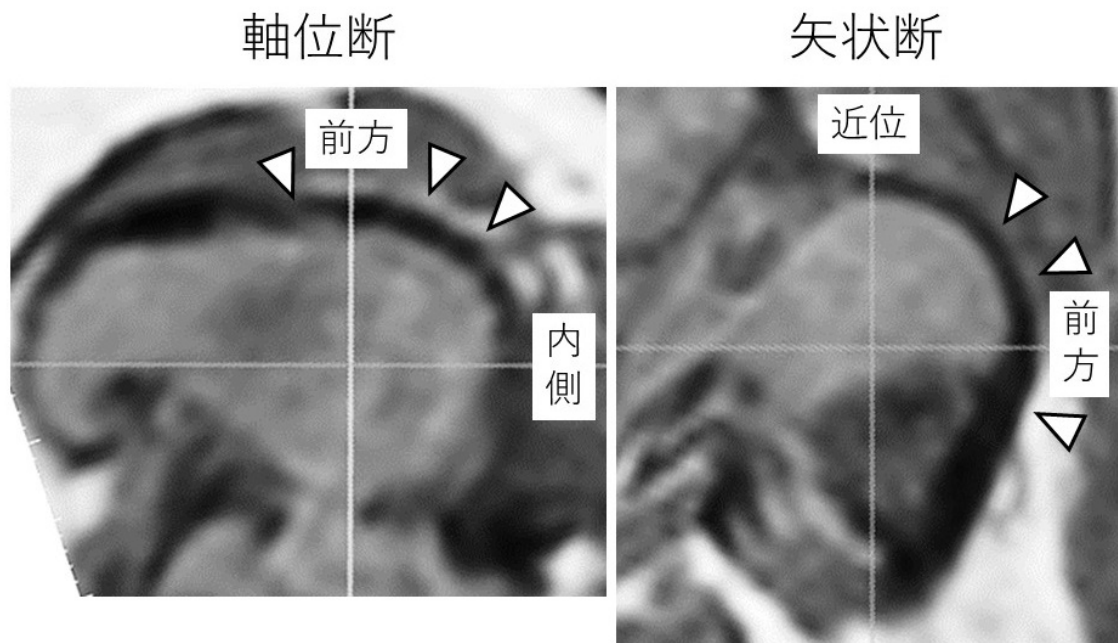


図 13 脱臼骨頭は寛骨臼とは接していないが，前方部分は関節包(△)に密着している.

本研究により脱臼整復後 2 歳頃には真球性が改善することが明らかとなった．脱臼整復前には骨頭の近位後方内側に発育障害と考えられる変形を認めていたが，骨頭が臼蓋に包み込まれて密着したために正常な発育が促進され，リモデリングが生じたものと考えられる（図 14）.

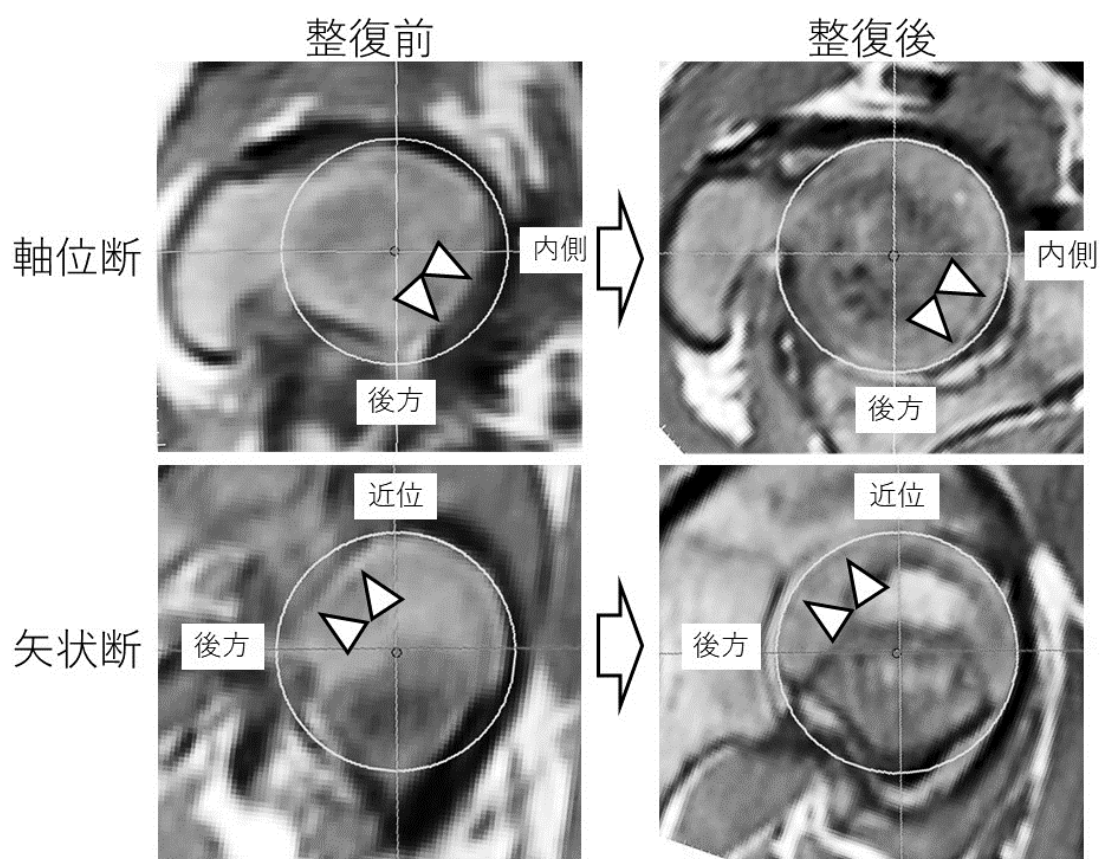


図 14 整復前にみられた大腿骨頭近位後方内側の変形は整復後にリモデリングが生じ、真球性が改善している。

成人期寛骨臼形成不全に関しては、求心性の低い股関節ほど骨頭の真球性が低いという報告や<sup>79</sup>、臼蓋が低形成な股関節ほど骨頭の真球性が低いという報告<sup>80</sup>がある。本研究により脱臼整復後に骨頭の真球性が改善することが明らかとなり、成人期寛骨臼形成不全で見られる骨頭の変形は先天的な変形の遺残ではなく、股関節の低い求心性や不安定性による二次的な変形である可能性が示された。

本研究では AVN を生じた DDH 症例は除外したため、AVN を伴う症例の骨頭形態変化に関しては更なる解析が必要である。研究 1 の結果から DDH の脱臼骨頭は整復前には近位後方内側の発育障害がみられるが、脱臼整復後に速やかにリモデリングが生じることが明らかとなり、股関節の良好な求心性と安定性が維持されれば骨頭の真球性も維持される

ものと考えている。今後は骨成熟時の骨頭変形が生じるメカニズムを明らかにすること、幼少期の骨頭形態とその後の臼蓋発育との関連を明らかにすることが課題である。

#### 4.1.4 小括

脱臼整復前の骨頭は健側に比べて小さく、近位後方内側に発育障害を認めた。脱臼整復後の骨頭は健側に比べてわずかに大きくなり、整復前にみられた発育障害部分にリモデリングが生じ真球性が改善していた。3D-MRI による軟骨形態評価は治療法選択や予後予測の上で有用であると考えられる。

### 4.2 MRI による軟骨性臼蓋と関節唇の評価と予後予測(研究 2)

#### 4.2.1 方法と対象

乳児期から当院で加療し、すでに 6 歳以上に達した DDH のうち、神経筋疾患を除外した症例は 52 例であった。そのうち、2 歳時に MRI が撮像され、単純 X 線での評価もそろっていた 20 例 21 股(男児 2 例、女児 18 例、右 3 例、左 16 例、両側 1 例)を対象とした。対象症例のうち、6 歳までに補正手術が行われた症例はなかった。

2 歳時の単純 X 線撮影時平均年齢は 2 歳  $1 \pm 2$  カ月、MRI 撮像時平均年齢は 2 歳  $2 \pm 2$  カ月(脱臼整復後 1 年  $6 \pm 4$  カ月)であった。6 歳時の単純 X 線撮影時平均年齢は 6 歳  $1 \pm 1$  カ月であった。1.5Tesla の MRI 装置を用い、患者は仰臥位、股関節伸展、内外旋中間位とし、トリクロホスナトリウムによる鎮静下で撮像した。T1 強調像冠状断と T2 強調像あるいはプロトン密度強調像軸位断像を用いて軟骨形態および関節唇の評価を行った。



股関節単純 X 線での臼蓋発育評価に汎用されている AI<sup>34</sup>, CEA<sup>31</sup>, AHI<sup>35</sup> に対する軟骨性臼蓋の評価として, MRI 冠状断像を用いて軟骨性 AI(carilaginous acetabular index; CAI), 軟骨性 CEA(carilaginous center-edge angle; CCEA), 軟骨性 AHI(carilaginous acetabular-head index; CAHI)を測定した. また, 関節唇の状態は骨頭の求心性を反映すると考えられるため, 関節唇傾斜角(labral obliquity; LO)を測定した. LO は関節唇基部中央と関節唇先端を結ぶ線と両骨頭中心を結ぶ水平基準線とのなす角として独自に定義した値である(図 15). Hui-Taek ら<sup>100</sup>が報告した labral angle (LA)に類似したものだが, LA は臼蓋形態の影響を受けるために, 外方化の程度を反映しにくいという欠点がある(図 16). それに対し, LO は骨頭の外方化の影響をより直接的に反映し, 骨頭が関節唇を押し上げると LO は小さな値になる.

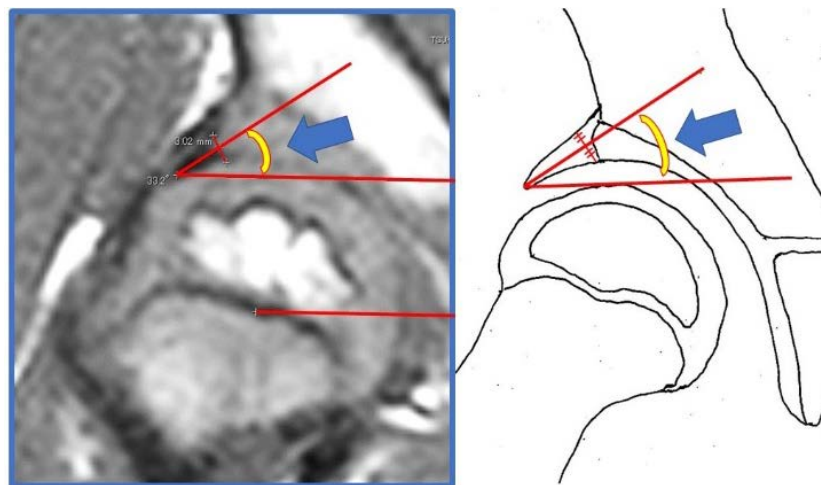


図 15 関節唇基部中央と関節唇先端を結ぶ線と両骨頭中心を結ぶ水平基準線とのなす角を関節唇傾斜角(the labral obliquity; LO)と独自に定義し計測した. 外方化が進むほど LO は小さくなる.

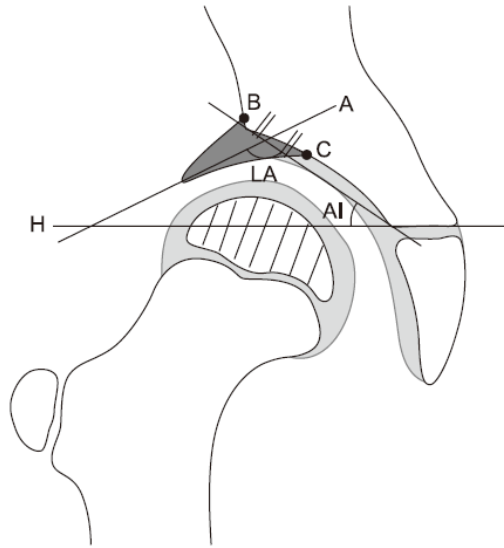


図 16 Hui-Teak らの labral angle (LA). 関節唇基部中点と関節唇先端を結ぶ線と腸骨下端と骨性臼蓋外側縁を結ぶ線とのなす角. 求心性が不良な股関節では骨頭が外方化するため LA は大きくなる. 求心性が不良な股関節は寛骨が低形成になる傾向があり, AI が大きくなるために LA が小さくなってしまい, 求心性の程度が LA に反映されにくい. (文献 100 より引用)

MRI 軸位断像では軟骨性前方被覆角(carilaginous anterior acetabular sector angle; CAASA)と軟骨性後方被覆角(cartilaginous posterior acetabular sector angle; CPASA)を計測した(図 13). これらの計測方法は Anda ら<sup>101</sup>が CT 軸位断像で前後方向の骨性被覆を計測した際の計測法を参考に, 軟骨性被覆を評価した.

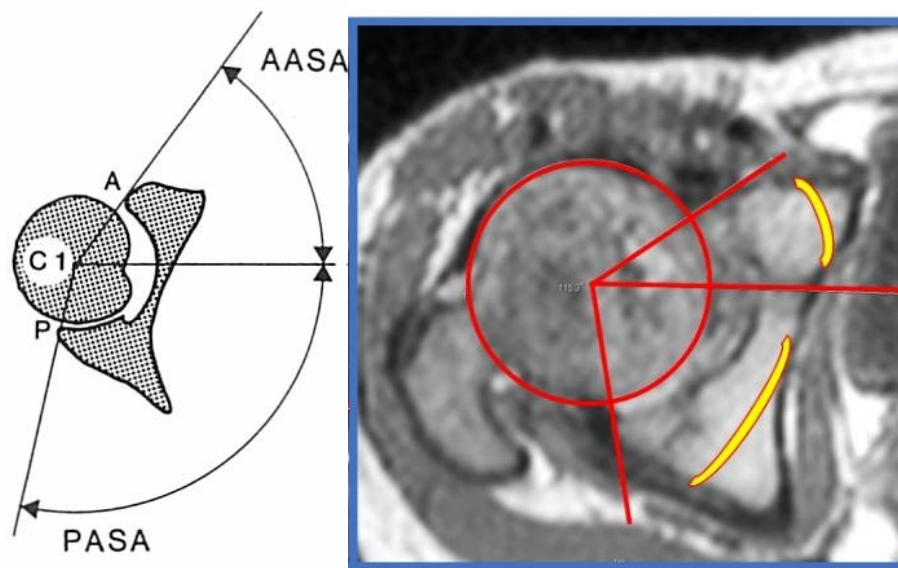


図 13 軸位断像において両骨頭中心を結んだ線を基準に、寛骨臼の前方被覆と後方被覆を計測した。(左図は文献 101 より引用)

骨性臼蓋の評価は、2 歳時の単純 X 線写真で AI と OEA<sup>32</sup> を、6 歳時の単純 X 線写真で AI, CEA, AHI を測定した。また、6 歳時の CEA をもとに Severin 分類<sup>102</sup> I および II を発育良好群、III および IV を発育不良群とした。

統計学的検討は、2 歳時の単純 X 線写真および MRI での各パラメーターと 6 歳時の単純 X 線写真での各パラメーターに関して Pearson の相関分析を行った。また、発育良好群と発育不良群の 2 歳時の各パラメーターを比較し、Student の t 検定を行った。有意水準は 0.05 とした。

#### 4.2.2 結果

2 歳時の各パラメーターの平均は、AI  $32 \pm 4^\circ$  , OE 角  $1 \pm 9^\circ$  , CAI  $17 \pm 6^\circ$  , CCEA  $9 \pm 8^\circ$  , CAHI  $60 \pm 9\%$  , LO  $24 \pm 7^\circ$  , CAASA  $35 \pm 7^\circ$  , CPASA  $74 \pm 6^\circ$  であった。

6 歳時の各パラメーターの平均は AI  $26 \pm 5^\circ$  , CEA  $12 \pm 6^\circ$  , AHI  $68 \pm 9\%$ であった。

発育良好群 7 股, 発育不良群は 14 股であった。

各パラメーター同士の相関を表 1 に示す。2 歳時の AI, CCEA, CAHI, LO は 6 歳時の各パラメーターと相関をみとめた。MRI による計測値に関しては, 2 歳時の CCEA と LO は 6 歳時の AI, CEA, AHI に, 2 歳時の CAHI は 6 歳時の AI と CEA に相関を認めた。CAI は相関を認めなかった。一方, 単純 X 線写真による計測値に関しては, 2 歳時の AI は 6 歳時の AI のみに相関を認めたが, その他のパラメーターはすべて有意な相関がみられなかった。軸位断像の評価に関しては, CAASA, CPASA とも相関がみられなかった。

発育良好群と発育不良群の 2 歳時の各パラメーターの比較を表 2 に示す。CCEA, CAHI, LO に有意な差がみられた。単純 X 線写真の各パラメーターおよび CAI, CAASA, CPASA には有意差がなかった。

予後良好を陽性所見としてカットオフ値を算出すると, CCEA  $10^\circ$  (感度 71.4%, 特異度 71.4%), CAHI 60%(感度 85.7%, 特異度 64.3%), LO  $24^\circ$  (感度 85.7%, 特異度 50.0%)であった。

表 1 2 歳時と 6 歳時の放射線学的各パラメーターの相関

		2 歳時の放射線学的各パラメーター								
		XP		MRI						
		AI	OEA	CAI	CCEA	CAHI	LO	CAASA	CPASA	
6 歳時のパラメーター	AI	R	0.707*	-0.429	0.271	-0.669*	-0.624*	-0.524*	-0.170	-0.422
		P-value	<0.001	0.052	0.235	<0.001	0.003	0.015	0.462	0.057
	CEA	R	-0.407	0.311	0.069	0.612*	0.602*	0.602*	0.129	0.416
		P-value	0.067	0.170	0.765	0.003	0.004	0.004	0.579	0.061
	AHI	R	-0.309	0.129	0.097	0.473*	0.419	0.437*	0.024	0.367
		P-value	0.173	0.576	0.677	0.030	0.059	0.048	0.919	0.102

表 2 予後良好群と不良群の 2 歳時の放射線学的パラメーターの比較

		予後良好群			予後不良群			P-value
		n=7			n=14			
		Average			Average			
XP	AI	30	±	4 °	33	±	4 °	0.207
	OEA	5	±	4 °	-2	±	10 °	0.095
MRI	CAI	17	±	3 °	17	±	8 °	0.873
	CCEA*	15	±	7 °	6	±	7 °	0.018
	CAHI*	66	±	8 °	58	±	8 °	0.041
	LO*	28	±	5 °	22	±	7 °	0.036
	CAASA	38	±	7 °	34	±	6 °	0.13
	CPASA	75	±	8 °	73	±	5 °	0.523

#### 4.2.3 考察

DDH の治療において、遺残した寛骨臼形成不全に対しては就学前頃を目安に補正手術をすることが推奨されている<sup>66</sup>。幼児期の股関節 MRI から補正手術の適応を最終的に決定する時期(6 歳頃)の股関節発育を予測した報告はない。研究 2 では MRI による 2 歳時の軟骨性臼蓋および関節唇による評価は 6 歳時の骨性臼蓋の発育と強い相関を認めるが、単純 X

線写真での各パラメーターは AI 以外に相関はみられなかった。また、予後良好群と予後不良群の各パラメーターは MRI による評価項目のみに有意差をみとめた。

Zamzam ら<sup>103</sup>は非観血的整復時(平均月齢 8 ヶ月)の股関節造影 X 線写真を検討し、CAI が 20° 以下であれば予後良好だが、24° 以上の症例は全例に遺残性寛骨臼形成不全を生じ、補正手術を要したと報告している。本研究では CAI の相関は乏しく、カットオフ値は見いだせなかった。本研究で用いた MRI は患児が仰臥位で撮像しているが、冠状断像は床面に水平に撮像されるため、わずかな骨盤の回旋によって両大腿骨頭中心を通らないスライスとなり、CAI の計測に必要な両腸骨下端の位置が不正確となったために、CAI での有意な相関が見いだせなかった可能性がある。幼児期股関節 MRI を評価した Takeuchi ら<sup>73</sup>も予後良好群と不良群の CAI に有意差を見いだせていなかった。今後は 3D-MRI を用いて anterior pelvic plane(両上前腸骨棘と恥骨結合中央点)を基準に再構成した正確な冠状断像により、関節造影よりも侵襲の少ない MRI による評価が可能になると考えている。

Douira-Khomsy ら<sup>76</sup>は遺残性寛骨臼形成不全と診断した幼児に対して平均 5 歳時に股関節 MRI を撮像し、冠状断像の軟骨性 AHI85%以上、矢状断像の軟骨性 AHI95%以上の症例はその後平均 2 年の経過で良好な股関節発育が得られたと報告している。研究 2 では 2 歳時の MRI を用いたが、冠状断の軟骨性 AHI が 60%未満の場合は、その後 4 年の経過で 90%が予後不良であった。Bos ら<sup>74</sup>も 4 歳から 8 歳の遺残性寛骨臼形成不全の股関節 MRI を検討し、骨性・軟骨性ともに臼蓋被覆が不良な場合は補正手術を勧めるが、骨性被覆が不良であっても軟骨性被覆が良好な場合は臼蓋の骨化が進んで良好な寛骨臼形成が得られる可能性があるため、慎重な経過観察のみを勧めると述べている。本研究では 2 歳時の骨性臼蓋として単純 X 線写真でのパラメーターを評価したが、これらでは 6 歳時の臼蓋発育を予見できなかった。それに対し、MRI で評価した軟骨性臼蓋の被覆状況はその後の寛骨臼発育を予見できる可能性があると考えられる。

Wakabayashi ら<sup>85</sup>は 3 歳頃の股関節 MRI を評価し、寛骨臼荷重部分に T2 強調像で高信

号所見が見られるとその後の寛骨臼発育が不良であると報告しており、今後は寛骨臼軟骨の質的評価も行っていくことでより正確な予後予測が可能になる可能性がある。

研究2では関節唇にも着目してLOを計測し、その有用性が明らかとなった。Shiraiら<sup>77</sup>はGraf法を参考に3歳から4歳の股関節MRIで腸骨外壁と関節唇からなるMRI- $\beta$ 角(図14)を測定し、6歳以降のSeverin分類との関連を検討している。カットオフ値としてMRI- $\beta$ 角 $65^{\circ}$ とし、予後不良(Severin分類IIIまたはIV)に対する感度は53%、特異度92%と報告している。本研究ではより早期の2歳時のMRIを評価したが、関節唇を指標としたカットオフ値LO $24^{\circ}$ は予後不良に対して感度50.0%、特異度85.7%と近似した効果がみられた。

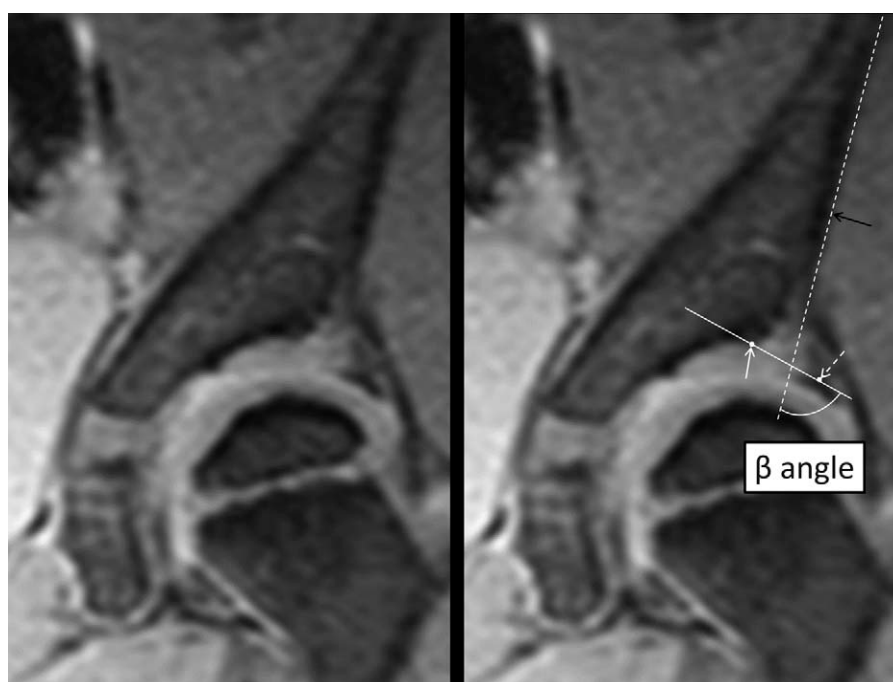


図14 超音波 Graf法を参照としたMRI- $\beta$ 角。腸骨壁下端(矢印)と関節唇中央点(破線矢印)を結ぶ線と腸骨外壁(破線)のなす角を計測。(文献77より引用)

2歳時のMRI軸位断像で評価したCAASAおよびCPASAと6歳時の寛骨臼発育には相関がみられなかった。6歳時の単純X線写真の評価は前後像のため、股関節冠状断に該当す

る。6 歳時の股関節形態も軸位断像で評価したら 2 歳時の CAASA および CPASA と相関がみられた可能性があるが、本研究では 6 歳時の評価は単純 X 線写真しかないため、これに関する解析はできなかった。

脱臼が整復された後に高度な寛骨臼形成不全が遺残した場合はできるだけ早期に補正手術を行うべきであるが<sup>104-106</sup>、寛骨臼発育が境界域の症例に対しては幼児期から 6 歳頃までの経過を見ながら治療者も家族もこの手術の必要性に頭を悩ませ続けることになる。乳幼児期に MRI を撮像するためには鎮静剤を使用する必要がある、それに関連した事故も報告されているため<sup>107</sup>、実施する上で十分な安全管理が必要であるが、脱臼整復後、2 歳時の MRI から得られた軟骨性臼蓋や関節唇の所見は 6 歳時の股関節発育を鋭敏に反映することが示され、将来の補正手術の必要性をより正確に説明するための有用な情報であると考えられた。

#### 4.2.4 小括

脱臼整復後 DDH の 2 歳時の MRI 評価で得られた軟骨性臼蓋および関節唇の所見から、遺残性寛骨臼形成不全に対して必要になる補正手術の適応が判断される 6 歳時の股関節発育を予見できる可能性が示された。脱臼が整復された後の幼児期の診療において、2 歳時の MRI 評価により正確な予後に関する情報提供が可能になると考えられた。



## 第5章 DDH 治療中に生じた大腿骨頭壊死の放射線学的予後予測(研究3)

### 5.1 対象と方法

2歳までに最終整復が得られ、10歳以降まで経過観察できた DDH123人123股を対象とした。女児111人、男児12人、片側116股(右35股、左81股)、両側7人7股(右3股、左4股、反対側の整復は2歳以降になったため除外)。整復時平均月齢 $10\pm6$ ヵ月。整復方法は Riemenbügel 装具<sup>36</sup>53股、牽引後の非観血的整復47股、観血的整復23股であった。20股に対して補正手術が行われ、Salter 骨盤骨切り術<sup>70</sup>10股、大腿骨減捻内反骨切り術4股、Salter 骨盤骨切りおよび大腿骨減捻内反骨切り合併手術6股であった。

幼児期 Salter 基準<sup>90</sup>の判定に用いた単純 X 線写真の評価時平均年齢は2歳 $1\pm6$ ヵ月(脱臼整復後1年 $4\pm3$ ヵ月)であった。最終評価時(平均年齢は $14\pm3$ 歳)の単純 X 線写真で Kalamchi 分類<sup>91</sup>を行った。股関節正面単純 X 線写真は仰臥位、股関節伸展、内外旋中間位で撮影し、過度な骨盤回旋がない写真<sup>20</sup>で評価を行った。

Salter 基準(S1 から S5)を表3および図15に示す。S5は遺残変形であるため、幼児期の AVN の評価である本研究では含んでいない。幼児期の単純 X 線写真で AVN の基準に当てはまらなかったものは S0 と分類した。頸部が幅広くなり(S3)、かつ、骨端核が分節化している(S4)ものは S3+4 と分類した(図16)。



骨端核なし

骨端核の成長なし

頸部の幅の拡大

骨端核の分節化

図 15 Salter 基準を満たす単純 X 線画像

S3+4

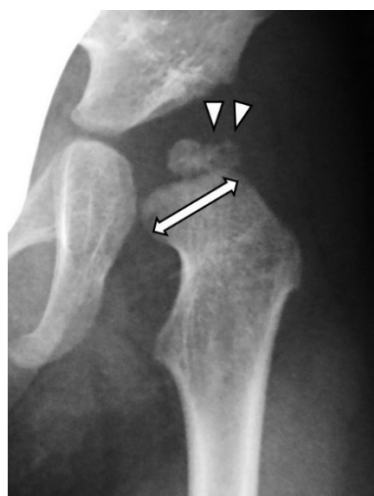


図 16 頸部が幅広くなり(S3), かつ, 骨端核が分節化している(S4)ものは S3+4  
と分類した

表 3 Salter 基準

基準 1	(S1)	Failure of the appearance of the ossifying nucleus of the femoral head for $\geq 1$ year post-reduction
基準 2	(S2)	Failure of growth in an existing ossifying nucleus for $\geq 1$ year post-reduction
基準 3	(S3)	Broadening of the femoral neck at 1 year post-reduction
基準 4	(S4)	Increased radiographic density of the femoral head followed by evidence of fragmentation

幼児期に判定した股関節 X 線で骨頭壊死の所見がないものは S0 とした

Kalamchi 分類(K I から K IV)を表 4 および図 17 に示す。最終評価時に AVN の所見がなかったものは K 0 と分類した。Kalamchi 分類に基づいて予後进行分类し、K 0 および K I を良好、K II を中間、K III および K IV を不良とした。

表 4 Kalamchi 分類

Grade I	(K I)	Changes affecting the ossific nucleus
Grade II	(K II)	Lateral physeal damage
Grade III	(K III)	Central physeal damage
Grade IV	(K IV)	Total damage to the head and physis

骨成熟期の股関節 X 線で骨頭壊死の所見がないものは K 0 とした

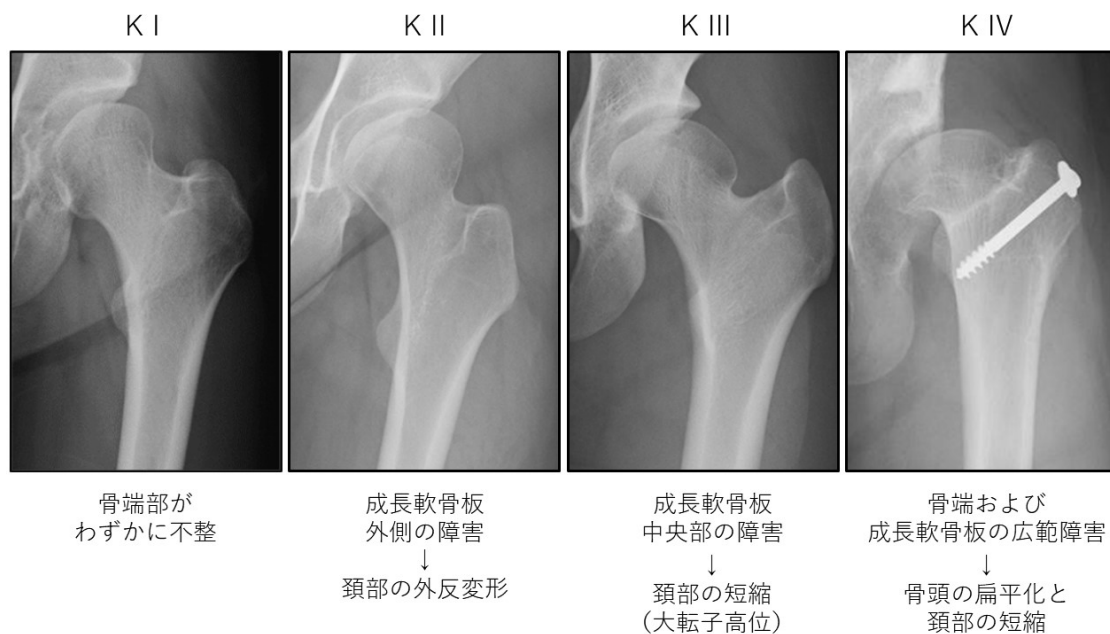


図 17 Kalamchi 分類ごとの単純 X 線写真. Grade が上がるほど予後も不良となる.

幼児期の単純 X 線写真では外方化の指標として center-head distance discrepancy (CHDD)<sup>108</sup> を測定した(図 18). さらにその他の特徴的所見として, 大腿骨頸部の幅の拡大, 近位骨幹端内側の膨張, 骨幹端外側の鈍化を特徴とした近位骨幹端のドーム状変形(dome-shaped deformity of the femoral metaphysis; D-shaped metaphysis) (図 19)に注目し Kalamchi 分類との関連について調査した.

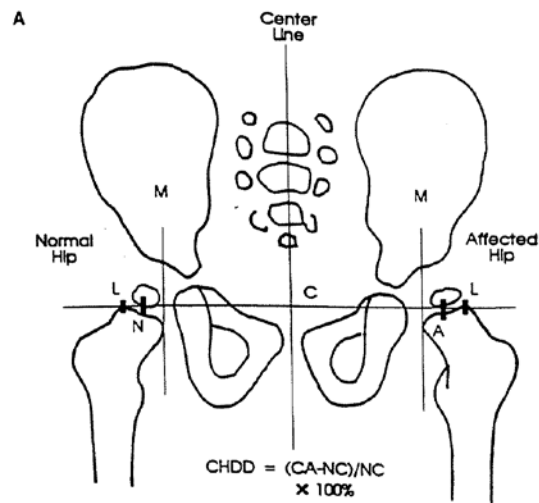


図 18 centre-head distance discrepancy (CHDD)は外方化の程度を表し，体軸中心から骨頭中心までの距離の差(CA-NC)の健側計測値(NC)に対する比率である．(文献 108 より引用)

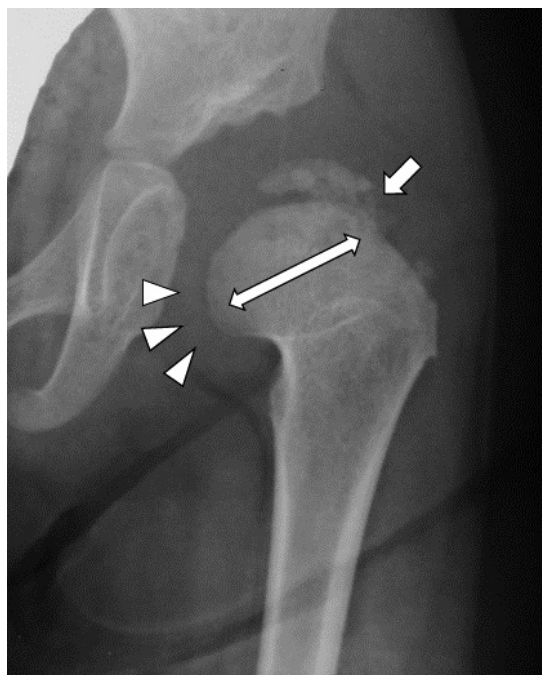


図 19 幼児期股関節 X 線で見られるドーム状変形(dome-shaped deformity of the femoral metaphysis; D-shaped metaphysis). 大腿骨頸部の幅の拡大，近位骨幹端内側の膨張(△)，骨幹端外側の鈍化(白矢印)を特徴とする．

統計学的検討は、整復方法と Salter 基準の関連および D-shaped metaphysis と Kalamchi 分類の関連に関して Fisher 正確確率検定を行った。CHDD は予後で良好中間と不良の群間で t 検定を行った。また、予後不良を陽性所見として receiver operating characteristic (ROC) 曲線を作成し、予後に対する CHDD のカットオフ値を算出した。有意水準は 0.05 とした。

## 5.2 結果

幼児期単純 X 線写真で AVN の所見の無い S0 は 70 股(57%)であった。10 歳以降の単純 X 線写真で AVN の所見の無い K 0 は 70 股(57%)であった。Salter 基準と Kalamchi 分類の関連を図 20 に示す。S1 および S2 の基準を満たした 8 股は全て予後不良であった。S3 または S4 単独であった 33 股中、予後不良は 4 股(12%)であったのに対し、S3+4 の 12 股中 6 股(50%)が予後不良であり、S3+4 は S3 または S4 単独よりも予後が不良であった。

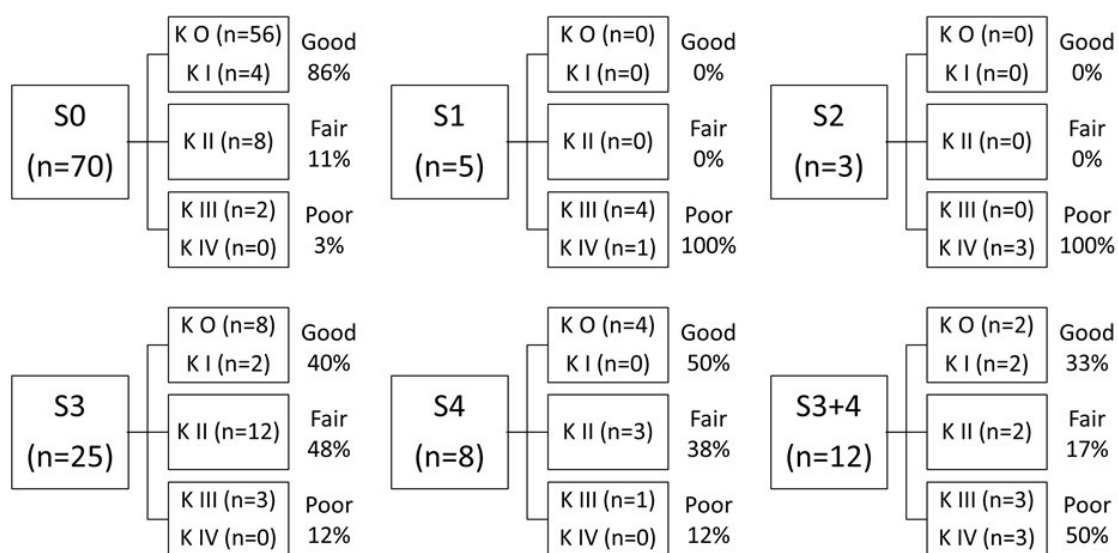


図 20 Salter 基準と Kalamchi 分類の相関図

整復方法と Salter 基準の関連を表 5 に示す。予後不良と強い関連がある S1 または S2 になる率は観血的整復群 17%(4/23 股)に対して、Riemenbügel 装具による整復または非観血整復群の 4%(4/100 股)であり、観血的整復群が高率であった( $p<0.01$ ; Fisher 正確確率検定)。骨頭壊死所見の無い S0 率は Riemenbügel 装具群 77%(43/53 股)、非観血的整復群 49%(23/47 股)、観血的整復群 17%(4/23 股)であり、Riemenbügel 装具群が有意に高かった( $p<0.01$ ; Fisher 正確確率検定)。

表 5 整復方法と Salter 基準の関連

	S0	S1	S2	S3	S4	S3+4	Total hips
Riemenbügel 装具	43	2	0	3	4	1	53
非観血整復	23	2	0	9	3	10	47
観血的整復	4	1	3	13	1	1	23

片側 DDH 116 股の平均 CHDD は  $7.2 \pm 5.4\%$  であった。予後良好・中間群(K 0, I, II)の平均 CHDD は  $6.3 \pm 4.8\%$  に対し、予後不良群(K III, IV)は  $16.8 \pm 2.6\%$  であり、予後不良群が有意に高値であった( $p<0.01$ ; unpaired t-test)。予後不良を陽性所見として CHDD5%ごとにプロットした Receiver operating characteristic (ROC)曲線を作成し、CHDD10%をカットオフ値とした(図 21)。

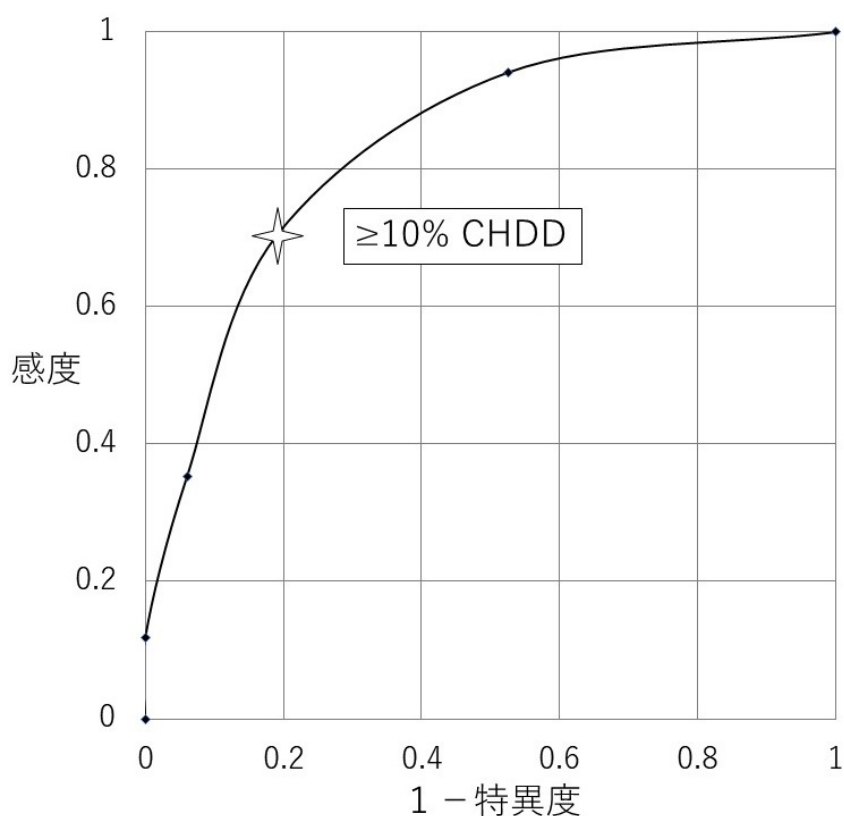


図 21 CHDD と予後は関連がみられ、10%CHDD をカットオフ値とした。

D-shaped metaphysis は 14 股(11%)にみとめた。Salter 基準別の症例数は S1 2 股, S2 1 股, S3 2 股, S3+4 9 股であった。D-shaped metaphysis を認めた 14 股中 10 股(71%)が予後不良となり、所見の無かった 109 股に比べて有意に高率であった( $p < 0.01$ ; Fisher 正確確率検定)(表 6)。

表 6 D-shaped metaphysis と予後との関連

	良好: K 0 or I n=78	中間: K II n=25	不良: K III or IV n=20
D-shaped あり n=14	3 (21%)	1 (7%)	10 (71%)
D-shaped なし n=109	75 (69)	24 (22)	10 (9)

$p < 0.01$  (Fisher's exact test)



S3, S4, S3+4 の 45 股に関しては, 18 股(40%)は予後良好, 17 股(38%)は中間, 10 股(22%)が不良であった. 片側例 42 股に関して, 10%CHDD と D-shaped metaphysis を加味してサブ解析を行った(表 7). D-shaped metaphysis を認めないものでは 94%(30/32 股)が予後良好または中間であった. D-shaped metaphysis を認めた 10 股に関しては, CHDD10%未満であれば 40%(2/5 股)が, CHDD10%以上であれば 80%(4/5 股)が予後不良であった.

表 7 CHDD  $\geq$  10% and/or a D-shaped metaphysis を加味した片側 S3, S4, S3+4 の予後との関連

Parameters	+/-	股関節数	良好・中間 n=15	不良 n=7
$\geq$ 10% CHDD	+	n=12	11 (92%)	1(8%)
D-shaped	-			
$\geq$ 10% CHDD	-	n=5	3 (60)	2(40)
D-shaped	+			
$\geq$ 10% CHDD	+	n=5	1 (20)	4(80)
D-shaped	+			

CHDD: center-head distance discrepancy

$p < 0.01$  (Fisher's exact test)

### 5.3 考察

DDH 治療における AVN 発生のリスクに関しては, 治療開始の遅れ<sup>109</sup>, 整復方法<sup>110-112</sup>, 整復時の骨端核の未出現<sup>113,114</sup>, 整復前の牽引の有無<sup>87,115</sup> などとの関連が指摘されている. しかしながら, AVN を確実に回避できる方法はなく, 一部の症例には生じてしまう合併症である<sup>87,110-113</sup>. 整復時に骨端核が出現していると AVN 発生率が下がるという報告もあるが<sup>116,117</sup>, それを否定する報告もあり<sup>118-120</sup>, 見解は一致していない. S2 は(整復時に骨端核

が出現しているが)整復後1年間、骨端核の成長が見られないものという基準<sup>90</sup>であり、本検討の中のS2の3股は整復時に骨端核が出現していたにも関わらず、全例において予後不良なAVNを生じていた。

AVNが発生した股関節の骨成熟時の形態学的分類であるKalamchi分類は機能予後と相關するため、脱臼整復後1から2年の幼児期DDHの単純X線所見と骨成熟年齢のKalamchi分類との相關を検討した。S1とS2は全例予後不良(K III, IV)であった。S3, S4, S3+4に関しては、18股(40%)は予後良好、17股(38%)は中間、10股(22%)が不良であった。これらはCHDD10%以上の外方化やD-shaped metaphysisが加わることでより予後不良率が高くなった。CHDD10%以上の外方化もD-shaped metaphysisも認める場合は80%が予後不良であった。

整復方法に関してはRiemenbügel装具群の早期のAVN所見陰性(S0)率が最も高かった。観血的整復群はS1およびS2の出現率が高かった。

Changら<sup>121</sup>はS3とS4基準を満たしたDDHのその後の骨頭形態を検討し、S3の57%(13/23股)、S4の15%(2/13股)が骨成熟時の単純X線で骨頭が2mm以上扁平化していたと報告している。しかし、Salter基準とKalamchi分類の相關を検討したものではない。

本研究から得られた臨床的に重要な点として、幼児期にAVNの所見の無いS0の14%(10/70股)が骨成熟時にK II以上のAVNになっていたことがあげられる。このうち、予後不良(K III, IV)の2股は両側例の1股と、CHDD10%以上の片側例8股中の1股であった。両側例は片側例に比べてAVN発生のリスクが高いという報告がある<sup>122</sup>。片側例ではCHDD10%以上の外方化が1つの予測因子となりえた。

Chenら<sup>108</sup>はCHDDを指標とした外方化の程度と予後との関連を検討し、脱臼整復後6から12カ月時にCHDD6%以上の外方化がみられる症例の78%(14/18股)がSeverin分類III以上(予後不良)となっていたと報告している。

幼児期単純X線写真でのD-shaped metaphysisの存在も予後不良の予測因子であった。

O'Brien ら<sup>123</sup> は AVN の放射線学的特徴として骨幹端部の遺残変形”vertex closure”を報告している。本研究で指摘した D-shaped metaphysis (骨幹端内側部の膨らみと外側部 edge の鈍化)は Keret ら<sup>124</sup> が年長児 DDH90 度の AVN の放射線学的特徴として報告した”medial bowing”や”lateral tilting”に類似している。この報告<sup>124</sup>の中では骨成熟時の形態分類として Zions and MacEwen の分類<sup>52</sup>が使われ、中等度から重度の medial bowing または lateral tilting を認める例の約半数が予後不良な骨形態になったと報告している。しかし、この報告は幼少期の骨幹端部の変形と Kalamchi 分類の相関を検討したものではない。本研究で指摘した幼児期の D-shaped metaphysis は予後不良(K III, IV)と強い相関がみられた。

#### 5.4 小括

DDH の治療により生じた AVN の放射線学的所見として、脱臼整復後 1 から 2 年の Salter 基準と、骨成熟年齢での Kalamchi 分類には相関があった。S1 または S2 は全例 Kalamchi III または IV の予後不良となっていた。S3, S4 または S3+4 の 22%が予後不良となっていたが、幼児期単純 X 線写真で D-shaped metaphysis や CHDD10%以上の外方化が見られる症例はより高率に予後が不良になっていた。幼児期の単純 X 線写真で AVN の所見を認めなくても、14%の症例が後に Kalamchi II 以上の変形を生じていた。

## 第6章 研究の限界

本研究の限界点の1点目として、言及した予後は骨成熟時の形態学的特徴をもとに分類したものであり、実際の股関節機能や患者満足度に関して評価はできていない点が挙げられる。しかし、DDHの臼蓋形成不全に関する調査<sup>64,102,125</sup>やAVNに関する調査<sup>126</sup>で、骨形態と股関節機能やQuality of lifeとの相関は報告されており、本研究で示した画像評価での成績も実際の股関節機能予後と相関があるものと考えている。2点目として、MRIを用いた研究では比較的短期の成績との関連を示したに過ぎず、真の長期予後に対する有用性は示せていない。この点は、今後追跡調査を行う必要があると考えている。

## 第7章 総括

### 7.1 3D-MRI による脱臼整復前の骨頭形態および脱臼整復後の形態変化の解析

脱臼整復前の骨頭は健側に比べて小さく、近位後方内側に変形を認めた。脱臼整復後の骨頭は健側に比べてわずかに大きくなり、整復前にみられた変形がリモデリングし真球性が改善していた。関節包内脱臼していた大腿骨頭の前方部分は関節包に密着しているためにこの部分は正常な発育が維持されていたと推察され、脱臼整復後に近位後内側部分も寛骨臼に被覆されたことで速やかにリモデリングが生じたと考えられた。その後は股関節の良好な求心性と安定性により骨頭の真球性も維持されるものと考えている。今後は一部の DDH 患者に見られる骨成熟時の骨頭変形が生じるメカニズムを明らかにすること、幼少期の骨頭形態とその後の臼蓋発育との関連を明らかにすることが課題であるが、3D-MRI による軟骨形態評価は DDH の治療法選択や予後予測の上で有用であると考えている。

### 7.2 MRI による軟骨性臼蓋および関節唇の評価と予後予測

脱臼整復後 DDH の 2 歳時の MRI 評価で得られた軟骨性臼蓋および関節唇の所見から、遺残性寛骨臼形成不全の補正手術を検討する 6 歳時の股関節発育を予見できる可能性が示された。脱臼が整復された後の幼児期の診療において、2 歳時の MRI 評価により正確な予後に関する情報提供が可能である。

このように、幼児期 DDH の股関節発育状態に関して MRI を用いて正確に評価することで、より正確に予後を推定することができると考えている。今後はさらに長期的な縦断解析によって股関節の最終形態との相関を検討し、より有用な予後予測因子を解明していく予定である。

### 7.3 DDH 治療中に生じた大腿骨頭壊死の放射線学的予後予測

DDH の治療における合併症に AVN があり、それが重症であるほど予後は不良となる。しかし、幼児期に AVN が判明しても長期的な予後を推測する因子は解明されていなかった。幼児期 AVN の早期診断基準としては Salter 基準が、予後と相関のある骨形態による骨成熟期の分類としては Kalamchi 分類が汎用されている。この 2 つの相関を検討することで、幼児期の単純 X 線所見から骨成熟期の AVN 重症度を推測することが可能となった。S1 または S2 は全例 Kalamchi III または IV の予後不良となっていた。S3, S4 または S3+4 の 22% が予後不良となっていた。その他の幼児期単純 X 線写真でみられる特徴的な所見として D-shaped metaphysis や CHDD10%以上の外方化も予後不良因子と考えられた。一方で、幼児期の単純 X 線写真で AVN の所見を認めなくても、14%の症例が後に Kalamchi II 以上の変形を生じていたことが明らかとなった。

AVN に対しては早期の手術(骨盤骨切り術)により予後が改善することが報告されており<sup>127</sup>、幼児期の X 線所見から AVN の重症化が強く懸念される症例に対して積極的に早期介入を行うための判断材料になりうると考えられる。

## 第8章 結論

乳幼児期の股関節は軟骨成分が豊富であるため、その形態評価には MRI が有用である。DDH の脱臼整復前および脱臼整復後の骨頭軟骨形態を 3D-MRI を用いて評価した。脱臼整復前の骨頭は近位後方内側に変形が生じており、整復後にリモデリングが生じていた。幼児期の軟骨性臼蓋および関節唇の評価はその後の寛骨臼発育を予見できる点で有用であり、2 歳時の MRI によるカットオフ値は、軟骨性 CEA10°，軟骨性 AHI 60%，関節唇傾斜角 24° と設定した。このカットオフ値よりも良好な軟骨性臼蓋が 2 歳時に得られていれば補正手術は不要になる可能性が高い。

DDH の治療中で生じた AVN は患児の予後を大きく左右する。Salter 基準に基づいた幼児期の単純 X 線所見と骨成熟期の Kalamchi 分類に相関がみられ、幼児期に将来の股関節形態を予見することが可能となり、必要な症例には早期介入するための一助となるものと考えられた。

MRI を用いて幼児期の股関節発育状態を詳細に評価することの有用性を示した。幼児期の単純 X 線画像および MRI 所見から DDH の予後推定因子を見出した。DDH 治療においてこれらの成果を生かし、患児およびその家族に対してよりの確な情報提供および至適な治療提供を行えるものとする。

## 参考文献

1. Wang E, Liu T, Li J, et al. Does swaddling influence developmental dysplasia of the hip?: An experimental study of the traditional straight-leg swaddling model in neonatal rats. J Bone Joint Surg Am. 2012;94(12):1071-1077.
2. 山室隆夫. こどもの運動器の健やかな成長を願って 先天性股関節脱臼の成立因子とその予防について. 日小児整外会誌. 2010;19(2):203-211.
3. Ilfeld FW, Westin GW, Makin M. Missed or developmental dislocation of the hip. Clin Orthop Relat Res. 1986(203):276-281.
4. 後藤英司. 先天性股関節脱臼治療の長期成績 脱臼整復後の X 線評価の推移. 臨床整形外科. 1998;33(3):321-325.
5. 池田威. 臼蓋形成不全と先天性股関節亜脱臼の長期自然経過. 関節外科. 1990;9(4):459-465.
6. 鈴木茂夫. 先天性股関節脱臼の病理・診断・治療の現状. 日整会誌. 1998;72(5):191-201.
7. 服部義. 3 大小児整形外科疾患と言われた先天股脱, 先天性内反足, 筋性斜頸 その過去と現在 日本における発育性股関節形成不全(ddh)の過去と現在 疫学と保存的整復の推移. 日整会誌. 2016;90(7):473-479.
8. 今田拓. 先天股脱の発生は減少している. 日整会誌. 1973;47(12):1218-1219.
9. Ishida K. Prevention of the development of the typical dislocation of the hip. Clin Orthop Relat Res. 1977(126):167-169.
10. 山田順亮. 先天性股関節脱臼の予防活動 過去・現在・未来. 日小児整外会誌. 2011;20(2):466-473.
11. Lehmann HP, Hinton R, Morello P, et al. Developmental dysplasia of the hip practice guideline: Technical report. Pediatrics. 2000;105(4):e57.
12. 品田良之, 飯田哲, 河本泰成ほか. 松戸市の乳児先天性股関節脱臼検診の現状と今後. 整形外科. 2014;65(10):1017-1022.
13. Ortolani M. Congenital hip dysplasia in the light of early and very early diagnosis. Clin Orthop. 1976(119):6-10.



14. Barlow T. Early diagnosis and treatment of congenital dislocation of the hip. *J Bone Joint Surg Br.* 1962;44B:292-301.
15. Suzuki S. Ultrasound and the pavlik harness in CDH. *J Bone Joint Surg Br.* 1993;75(3):483-487.
16. Castelein R, Korte J. Limited hip abduction in the infant. *J Pediatr Orthop.* 2001;21(5):668-670.
17. Ando M, Gotoh E. Significance of inguinal folds for diagnosis of congenital dislocation of the hip in infants aged three to four months. *J Pediatr Orthop.* 1990;10(3):331-334.
18. Ömerog˘lu H, Koparal S. The role of clinical examination and risk factors in the diagnosis of developmental dysplasia of the hip: A prospective study in 188 referred young infants. *Arch Orthop Trauma Surg.* 2001;121(1):7-11.
19. Yamamuro T, Chene S. A radiological study on the development of the hip joint in normal infants. *J Jpn Orthop Assoc.* 1975;49(7):421-439.
20. Tönnis D. Normal values of the hip joint for the evaluation of X-rays in children and adults. *Clin Orthop Relat Res.* 1976(119):39-47.
21. Narayanan U, Mulpuri K, Sankar W, et al. Reliability of a new radiographic classification for developmental dysplasia of the hip. *Journal of Pediatric Orthopaedics.* 2015;35(5):478-484.
22. Graf R. The diagnosis of congenital hip-joint dislocation by the ultrasonic compound treatment. *Arch Orthop Trauma Surg.* 1980;97(2):117-133.
23. Jaremko JL, Mabee M, Swami VG, et al. Potential for change in US diagnosis of hip dysplasia solely caused by changes in probe orientation: Patterns of alpha-angle variation revealed by using three-dimensional US. *Radiology.* 2014;273(3):870-878.
24. 鈴木茂夫, 笠原吉孝, 駒井理. 前方アプローチによる先天性股関節脱臼の超音波診断. *日整外超音波研究会誌.* 1990;1(1):40-42.
25. 亀ヶ谷真琴, 篠原裕治, 品田良之ほか. 先天股脱(完全脱臼)例の開排位における超音波前方法検査について. *日小児整外会誌.* 1992;2(2):510-515.
26. Race C, Herring JA. Congenital dislocation of the hip: An evaluation of closed reduction.

J Pediatr Orthop. 1983;3(2):166-172.

27. Takeuchi R, Kamada H, Sato Y, Sakane M. Air embolism during arthrography for developmental dysplasia of the hip. Clinics and Practice. 2013;3(1):e12-e12.

28. Ge Y, Cai H, Wang Z. Quality of reduction and prognosis of developmental dysplasia of the hip: A retrospective study. Hip Int. 2016;26(4):355-359.

29. Sachleben B, Perry DC, Wedge J, et al. Intraoperative assessment of closed reduction for developmental dislocation of the hip using 3-dimensional fluoroscopy. J Pediatr Orthop. 2015;35(3):246-252.

30. Smith BG, Kasser JR, Hey LA, et al. Postreduction computed tomography in developmental dislocation of the hip: Part I: Analysis of measurement reliability. J Pediatr Orthop. 1997;17(5):626-630.

31. Wiberg G. Studies on dysplastic acetabula and congenital subluxation of the hip joint : With special reference to the complication of osteoarthritis. Acta Chir Scand. 1939;83(58):53-68.

32. Ohmori T, Endo H, Mitani S, et al. Radiographic prediction of the results of long-term treatment with the pavlik harness for developmental dislocation of the hip. Acta Med Okayama. 2009;63(3):123-128.

33. Hilgenreiner H. Early diagnosis and early treatment of congenital dislocation of the hip. german. Medizinische Klinik. 1925;21:1385-1389.

34. Kleinberg S, Lieberman HS. The acetabular index in infants in relation to congenital dislocation of the hip. Archives of Surgery. 1936;32:1049-1054.

35. Heyman CH, Herndon CH. Legg-perthes disease; a method for the measurement of the roentgenographic result. J Bone Joint Surg Am. 1950;32(4):767-778.

36. Pavlik A. A harness for treatment of congenital hip dislocation in infants. Acta Chir Orthop Traumatol Cech. 1953;20(5-6):93-100.

37. Pavlik A. The functional method of treatment using a harness with stirrups as the primary method of conservative therapy for infants with congenital dislocation of the hip. 1957. Clin Orthop. 1992(281):4-10.

38. 日本小児股関節研究会リーメンビューゲル治療に関するワーキンググループ. リーメンビューゲル(rb)治療マニュアル 先天性股関節脱臼(発育性股関節形成不全)に対する安全な装着を目指して. 日小児整外会誌. 2012;21(2):391-408.
39. Grill F, Bensahel H, Canadell J, et al. The pavlik harness in the treatment of congenital dislocating hip: Report on a multicenter study of the european paediatric orthopaedic society. J Pediatr Orthop. 1988;8(1):1-8.
40. Taylor GR, Clarke NM. Monitoring the treatment of developmental dysplasia of the hip with the pavlik harness. the role of ultrasound. J Bone Joint Surg Br. 1997;79(5):719-723.
41. 西須孝, 亀ヶ谷真琴, 三浦陽子ほか. 先天性股関節脱臼の初期治療とペルテス様変化. 日小児整外会誌. 2004;13(2):179-183.
42. Herring JA. Tachdjian's pediatric orthopaedics. 5th ed. ; 2013:506.
43. 塚越祐太, 鎌田浩史, 亀ヶ谷真琴ほか. 発育性股関節形成不全(脱臼)に対するリーメンビューゲル装着期間の検討 - 6 週間と 3 カ月間装着の比較 -. 日小児整外会誌. 2017;26(1):152-155.
44. Tönnis D. Ischemic necrosis as a complication of treatment of C.D.H. Acta Orthop Belg. 1990;56(1 Pt A):195-206.
45. Ramsey PL, Lasser S, MacEwen GD. Congenital dislocation of the hip. use of the pavlik harness in the child during the first six months of life. J Bone Joint Surg Am. 1976;58(7):1000-1004.
46. Bradley CS, Perry DC, Wedge JH, et al. Avascular necrosis following closed reduction for treatment of developmental dysplasia of the hip: A systematic review. J Child Orthop. 2016;10(6):627-632.
47. DeRosa GP, Feller N. Treatment of congenital dislocation of the hip. management before walking age. Clin Orthop. 1987(225):77-85.
48. Joseph K, MacEwen GD, Boos ML. Home traction in the management of congenital dislocation of the hip. Clin Orthop. 1982(165):83-90.
49. Kahle WK, Anderson MB, Alpert J, Stevens PM, Coleman SS. The value of preliminary traction in the treatment of congenital dislocation of the hip. J Bone Joint Surg Am. 1990;72(7):1043-1047.

50. Quinn RH, Renshaw TS, DeLuca PA. Preliminary traction in the treatment of developmental dislocation of the hip. *J Pediatr Orthop*. 1994;14(5):636-642.
51. Malvitz TA, Weinstein SL. Closed reduction for congenital dysplasia of the hip. functional and radiographic results after an average of thirty years. *J Bone Joint Surg Am*. 1994;76(12):1777-1792.
52. Zions LE, MacEwen GD. Treatment of congenital dislocation of the hip in children between the ages of one and three years. *J Bone Joint Surg Am*. 1986;68(6):829-846.
53. Sucato D, De La Rocha A, Lau K, et al. Overhead bryant's traction does not improve the success of closed reduction or limit AVN in developmental dysplasia of the hip. *J Pediatr Orthop*. 2017;37(2):E108-E113.
54. Tennant S, Eastwood D, Calder P, et al. A protocol for the use of closed reduction in children with developmental dysplasia of the hip incorporating open psoas and adductor releases and a short-leg cast: Mid-term outcomes in 113 hips. *Bone Joint J*. 2016;98B(11):1548-1553.
55. Fukiage K, Futami T, Ogi Y, et al. Ultrasound-guided gradual reduction using flexion and abduction continuous traction for developmental dysplasia of the hip: A new method of treatment. *Bone Joint J*. 2015;97B(3):405-411.
56. 柏木直也, 鈴木茂夫, 瀬戸洋一ほか. 超音波断層法モニタリング下開排位持続牽引法で治療した股関節脱臼 通常の乳児先天性股関節脱臼以外の症例に対する適用. *日整外超音波研会誌*. 1996;8(1):26-34.
57. Ludloff K. The open reduction of the congenital hip dislocation by an anterior incision. *J Bone Joint Surg Am*. 1913;s2-10(3):438-454.
58. Somerville EW. Open reduction in congenital dislocation of the hip. *J Bone Joint Surg Br*. 1953;35B(3):363-371.
59. 田辺剛造, 国定寛之, 三宅良昌. 先天股脱 一観血的整復の際の1つの試み-. *日本整形外科学会雑誌*. 1977;51(7):503-511.
60. Akazawa H, Tanabe G, Miyake Y. A new open reduction treatment for congenital hip dislocation: Long-term follow-up of the extensive anterolateral approach. *Acta Med Okayama*. 1990;44(4):223-231.

61. 杉山肇, 中島育昌, 井手隆俊ほか. 先天性股関節脱臼に対する鏡視下手術の経験. 関節鏡. 2002;27(2):145-149.
62. 小松猛, 北野利夫, 酒井俊幸ほか. 先天性股関節脱臼に対する関節鏡視下整復術 関節唇形成術の実際. 関節鏡. 2001;26(1):33-37.
63. 垣花昌隆, 大関寛. 先天性(発育性)股関節脱臼に対する関節鏡を用いた整復術. 日小児整外会誌. 2012;21(2):258-262.
64. Albinana J, Dolan LA, Spratt KF, et al. Acetabular dysplasia after treatment for developmental dysplasia of the hip. implications for secondary procedures. J Bone Joint Surg Br. 2004;86(6):876-886.
65. Gotoh E, Tsuji M, Matsuno T, et al. Acetabular development after reduction in developmental dislocation of the hip. Clin Orthop Relat Res. 2000(378):174-182.
66. Lalonde FD, Frick SL, Wenger DR. Surgical correction of residual hip dysplasia in two pediatric age-groups. The Journal of Bone & Joint Surgery. 2002;84(7):1148-1156.
67. Kobayashi D, Satsuma S, Kuroda R, et al. Acetabular development in the contralateral hip in patients with unilateral developmental dysplasia of the hip. J Bone Joint Surg Am. 2010;92(6):1390-1397.
68. Salter RB. Role of innominate osteotomy in the treatment of congenital dislocation and subluxation of the hip in the older child. J Bone Joint Surg Am. 1966;48(7):1413-1439.
69. 西須 孝, 亀ヶ谷 真琴, 中村 順一ほか. 先天性股関節脱臼補正手術(ソルター法)の長期成績. 日小児整外会誌. 2006;15(2):214-219.
70. Kamegaya M, Shinohara Y, Shinada Y, Moriya H, Koizumi W, Tsuchiya K. The use of a hydroxyapatite block for innominate osteotomy. J Bone Joint Surg Br. 1994;76(1):123-126.
71. 亀ヶ谷 真琴. Salter 手術の適応と有効性について. 日整会誌. 2017;91(5):375-383.
72. 西須 孝. 【四肢関節の骨切り術】股関節 小児の臼蓋形成不全症に対する Salter Z 法. 整形外科. 2017;68(8):749-754.
73. Takeuchi R, Kamada H, Mishima H, et al. Evaluation of the cartilaginous acetabulum by magnetic resonance imaging in developmental dysplasia of the hip. J Pediatr Orthop B. 2014;23(3):237-243.

74. Bos CF, Bloem JL, Verbout AJ. Magnetic resonance imaging in acetabular residual dysplasia. *Clin Orthop Relat Res*. 1991(265):207-217.
75. Mansour E, Eid R, Romanos E, et al. The management of residual acetabular dysplasia: Updates and controversies. *J Pediatr Orthop B*. 2017;26(4):344-349.
76. Douira-Khomsi W, Smida M, Louati H, et al. Magnetic resonance evaluation of acetabular residual dysplasia in developmental dysplasia of the hip: A preliminary study of 27 patients. *J Pediatr Orthop*. 2010;30(1):37-43.
77. Shirai Y, Wakabayashi K, Wada I, et al. Magnetic resonance imaging evaluation of the labrum to predict acetabular development in developmental dysplasia of the hip A STROBE compliant study. *Medicine*. 2017;96(21):e7013.
78. Druschel C, Placzek R, Selka L, et al J. MRI evaluation of hip containment and congruency after closed reduction in congenital hip dislocation. *Hip Int*. 2013;23(6):552-559.
79. Sugano N, Noble P, Kamaric E, et al. The morphology of the femur in developmental dysplasia of the hip. *J Bone Joint Surg Br*. 1998;80B(4):711-719.
80. Steppacher SD, Tannast M, Werlen S, et al. Femoral morphology differs between deficient and excessive acetabular coverage. *Clin Orthop Relat Res*. 2008(466):782-790.
81. Mose K. Methods of measuring in legg-calvé-perthes disease with special regard to the prognosis. *Clin Orthop*. 1980(150):103-109.
82. Stulberg SD, Cooperman DR, Wallensten R. The natural history of legg-calve-perthes disease. *J Bone Joint Surg Am*. 1981;63(7):1095-1108.
83. Kamegaya M, Saisu T, Miura Y, et al. A proposed prognostic formula for perthes' disease. *Clin Orthop Relat Res*. 2005(440):205-208.
84. Tsukagoshi Y, Kamegaya M, Kamada H, et al. The correlation between Salter's criteria for avascular necrosis of the femoral head and Kalamchi's prognostic classification following the treatment of developmental dysplasia of the hip. *Bone and Joint Journal*. 2017;99B(8):1115-1120.
85. Wakabayashi K, Wada I, Horiuchi O, et al. MRI findings in residual hip dysplasia. *J Pediatr Orthop*. 2011;31(4):381-387.

86. Li LY, Zhang LJ, Li QW, Zhao Q, et al. Development of the osseous and cartilaginous acetabular index in normal children and those with developmental dysplasia of the hip: A cross-sectional study using MRI. *J Bone Joint Surg Br.* 2012;94B(12):1625-1631.
87. Roposch A, Stohr KK, Dobson M. The effect of the femoral head ossific nucleus in the treatment of developmental dysplasia of the hip. A meta-analysis. *J Bone Joint Surg Am.* 2009;91(4):911-918.
88. Luhmann SJ, Schoenecker PL, Anderson AM, et al. The prognostic importance of the ossific nucleus in the treatment of congenital dysplasia of the hip. *J Bone Joint Surg Am.* 1998;80(12):1719-1727.
89. Carney BT, Clark D, Minter CL. Is the absence of the ossific nucleus prognostic for avascular necrosis after closed reduction of developmental dysplasia of the hip? *J Surg Orthop Adv.* 2004;13(1):24-29.
90. Salter RB, Kostuik J, Dallas S. Avascular necrosis of the femoral head as a complication of treatment for congenital dislocation of the hip in young children: A clinical and experimental investigation. *Can J Surg.* 1969;12(1):44-61.
91. Kalamchi A, MacEwen GD. Avascular necrosis following treatment of congenital dislocation of the hip. *J Bone Joint Surg Am.* 1980;62(6):876-888.
92. Okano K, Yamaguchi K, Ninomiya Y, et al. Femoral head deformity and severity of acetabular dysplasia of the hip. *Bone Joint J.* 2013;95B(9):1192-1196.
93. Eismann EA, Laor T, Cornwall R. Three-dimensional magnetic resonance imaging of glenohumeral dysplasia in neonatal brachial plexus palsy. *J Bone Joint Surg Am.* 2016;98(2):142-151.
94. Fukiage K, Fukuda A, Harada Y, et al. Femoral head volume indicates the severity of developmental dysplasia of the hip by a method using three-dimensional magnetic resonance imaging. *J Pediatr Orthop B.* 2015;24(4):286-290.
95. Sankar WN, Neuburger CO, Moseley CF. Femoral head sphericity in untreated developmental dislocation of the hip. *J Pediatr Orthop.* 2010;30(6):558-561.
96. Gamble JG, Mochizuki C, Bleck EE, et al. Coxa magna following surgical treatment of congenital hip dislocation. *J Pediatr Orthop.* 1985;5(5):528-533.

97. Imatani J, Miyake Y, Nakatsuka Y, et al. Coxa magna after open reduction for developmental dislocation of the hip. *J Pediatr Orthop*. 1995;15(3):337-341.
98. Siffert RS. Patterns of deformity of the developing hip. *Clin Orthop Relat Res*. 1981(160):14-29.
99. O'Brien T, Salter RB. Femoral head size in congenital dislocation of the hip. *J Pediatr Orthop*. 1985;5(3):299-301.
100. Kim H, Kim I, Lee J. MR-based parameters as a supplement to radiographs in managing developmental hip dysplasia. *Clinics in Orthopedic Surgery*. 2011;3(3):202-210.
101. Anda S, Svenningsen S, Dale LG, et al. The acetabular sector angle of the adult hip determined by computed tomography. *Acta Radiol Diagn*. 1986;27(4):443-447.
102. Severin E. Congenital dislocation of the hip joint. *Acta Chirurgica Scandinavica*. 1941;84(63):32-54.
103. Zamzam MM, Kremli MK, Khoshhal KI, et al. Acetabular cartilaginous angle: A new method for predicting acetabular development in developmental dysplasia of the hip in children between 2 and 18 months of age. *J Pediatr Orthop*. 2008;28(5):518-523.
104. Barrett WP, Staheli LT, Chew DE. The effectiveness of the salter innominate osteotomy in the treatment of congenital dislocation of the hip. *J Bone Joint Surg Am*. 1986;68(1):79-87.
105. Fisher R, O'Brien TS, Davis KM. Magnetic resonance imaging in congenital dysplasia of the hip. *J Pediatr Orthop*. 1991;11(5):617-622.
106. Mitani S, Oda K, Tanabe G. Prediction for prognosis from radiologic measurements of patients treated with the pavlik harness for congenital dislocation of the hip. *J Pediatr Orthop*. 1993;13(3):303-310.
107. 久我修二. MRI 検査時の鎮静に関する共同提言は机上の空論か? *臨床小児医学*. 2015;63(1-6):11-16.
108. Chen IH, Kuo KN, Lubicky JP. Prognosticating factors in acetabular development following reduction of developmental dysplasia of the hip. *J Pediatr Orthop*. 1994;14(1):3-8.
109. Sibinski M, Synder M, Domzalski M, et al. Risk factors for avascular necrosis after closed



hip reduction in developmental dysplasia of the hip. *Ortop Traumatol Rehabil.* 2004;6(1):60-66.

110. Pool RD, Foster BK, Paterson DC. Avascular necrosis in congenital hip dislocation. the significance of splintage. *J Bone Joint Surg Br.* 1986;68B(3):427-430.

111. Kaneko H, Kitoh H, Mishima K, et al. Long-term outcome of gradual reduction using overhead traction for developmental dysplasia of the hip over 6 months of age. *J Pediatr Orthop.* 2013;33(6):628-634.

112. Firth GB, Robertson AJF, Schepers A, et al. Developmental dysplasia of the hip: Open reduction as a risk factor for substantial osteonecrosis. *Clin Orthop.* 2010;468(9):2485-2494.

113. Segal LS, Boal DK, Borthwick L, et al. Avascular necrosis after treatment of DDH: The protective influence of the ossific nucleus. *J Pediatr Orthop.* 1999;19(2):177-184.

114. Morbi AH, Carsi B, Gorianinov V, et al. Adverse outcomes in infantile bilateral developmental dysplasia of the hip. *J Pediatr Orthop.* 2015;35(5):490-495.

115. Yamada N, Maeda S, Fujii G, et al. Closed reduction of developmental dislocation of the hip by prolonged traction. *J Bone Joint Surg Br.* 2003;85B(8):1173-1177.

116. Agus H, Omeroglu H, Ucar H, et al. Evaluation of the risk factors of avascular necrosis of the femoral head in developmental dysplasia of the hip in infants younger than 18 months of age. *J Pediatr Orthop B.* 2002;11(1):41-46.

117. Clarke NM, Jowett AJ, Parker L. The surgical treatment of established congenital dislocation of the hip: Results of surgery after planned delayed intervention following the appearance of the capital femoral ossific nucleus. *J Pediatr Orthop.* 2005;25(4):434-439.

118. Xu M, Gao S, Sun J, et al. Predictive values for the severity of avascular necrosis from the initial evaluation in closed reduction of developmental dysplasia of the hip. *J Pediatr Orthop B.* 2013;22(3):179-183.

119. Cooke SJ, Rees R, Edwards DL, et al. Ossification of the femoral head at closed reduction for developmental dysplasia of the hip and its influence on the long-term outcome. *J Pediatr Orthop B.* 2010;19(1):22-26.

120. Sllamniku S, Bytyqi C, Murtezani A, Haxhija EQ. Correlation between avascular necrosis and the presence of the ossific nucleus when treating developmental dysplasia of the hip. *J*

Child Orthop. 2013;7(6):501-505.

121. Chang CH, Yang WE, Kao HK, et al. Predictive value for femoral head sphericity from early radiographic signs in surgery for developmental dysplasia of the hip. J Pediatr Orthop. 2011;31(3):240-245.

122. Wang TM, Wu KW, Shih SF, et al. Outcomes of open reduction for developmental dysplasia of the hip: Does bilateral dysplasia have a poorer outcome? J Bone Joint Surg Am. 2013;95(12):1081-1086.

123. O'Brien T. Growth-disturbance lines in congenital dislocation of the hip. J Bone Joint Surg Am. 1985;67(4):626-632.

124. Keret D, MacEwen GD. Growth disturbance of the proximal part of the femur after treatment for congenital dislocation of the hip. J Bone Joint Surg Am. 1991;73(3):410-423.

125. Terjesen T, Horn J, Gunderson RB. Fifty-year follow-up of late-detected hip dislocation: Clinical and radiographic outcomes for seventy-one patients treated with traction to obtain gradual closed reduction. J Bone Joint Surg Am. 2014;96(4):e28.

126. Roposch A, Liu LQ, Offiah AC, et al. Functional outcomes in children with osteonecrosis secondary to treatment of developmental dysplasia of the hip. J Bone Joint Surg Am. 2011;93(24):e145.

127. Bar-On E, Huo MH, DeLuca PA. Early innominate osteotomy as a treatment for avascular necrosis complicating developmental hip dysplasia. J Pediatr Orthop B. 1997;6(2):138-145.

## 学会発表

第 25 回日本小児整形外科学会学術集会 2014 年 11 月 千葉

先天性股関節脱臼における大腿骨頭の 3D-MRI を用いた真球性評価

塚越祐太, 鎌田浩史, 亀ヶ谷真琴, 竹内亮子, 中川将吾, 都丸洋平, 岡本嘉一, 三島初, 山崎正志

第 25 回日本小児整形外科学会学術集会 2014 年 11 月 千葉

先天性股関節脱臼治療後に生じた 大腿骨頭壊死例における早期 X 線所見の検討

塚越祐太, 亀ヶ谷真琴, 鎌田浩史, 西須孝, 森田光明, 柿崎潤, 瀬川裕子, 山崎正志

10th Asia Pacific Pediatric Orthopaedic Society. June 2015 Hong Kong

Correlation between Salter's and Kalamchi's classifications regarding avascular necrosis of the femoral head in DDH treatment

Y. Tsukagoshi, M. Kamegaya, H. Kamada, T. Saisu, M. Morita, J. Kakizaki, Y. Segawa, M. Yamazaki

第 54 回日本小児股関節研究会 2015 年 6 月 東京

エーラス・ダンロス症候群の股関節脱臼に対して骨盤および大腿骨骨切りを併用して観血的整復を行った 1 例

塚越祐太, 鎌田浩史, 十時靖和, 竹内亮子, 都丸洋平, 中川将吾, 三島初, 亀ヶ谷真琴, 山崎正志

第 42 回日本股関節学会学術集会 2015 年 10 月 大阪

1 歳未満の先天性股関節脱臼における大腿骨頭軟骨の真球性評価－3D-MRI を用いた軟骨形態評価－

塚越祐太, 鎌田浩史, 三島初, 竹内亮子, 中川将吾, 都丸洋平, 岡本嘉一, 亀ヶ谷真琴, 山崎正志

第 26 回日本小児整形外科学会学術集会 2015 年 12 月 岐阜

小児期臼蓋発育に関する横断的調査

塚越祐太, 亀ヶ谷真琴, 鎌田浩史, 西須孝, 森田光明, 柿崎潤, 都丸洋平, 中川将吾, 山崎正志

第 26 回関東小児整形外科研究会 2016 年 2 月 東京

当院における大腿骨頭すべり症の治療成績

塚越祐太, 鎌田浩史, 竹内亮子, 都丸洋平, 中川将吾, 山崎正志

American Academy of Orthopaedic Surgeons 2016 annual meeting. March 2016 Orlando, Florida

3D-MRI analyses of femoral head sphericity in patients with developmental dysplasia of the hip under 2 years old

Yuta Tsukagoshi, Hiroshi Kamada, Hajime Mishima, Ryoko Abe, Shogo Nakagawa, Yohei Tomaru, Yoshikazu Okamoto, Makoto Kamegaya, Masashi

第 89 回日本整形外科学会学術総会 2016 年 5 月 横浜

小児期臼蓋発育に関する横断的調査

塚越祐太, 亀ヶ谷真琴, 鎌田浩史, 西須孝, 森田光明, 柿崎潤, 都丸洋平, 中川将吾, 山崎正志

第 89 回日本整形外科学会学術総会 2016 年 5 月 横浜

先天性股関節脱臼治療後に生じた大腿骨頭壊死例における X 線所見の縦断調査 - Salter 基準と Kalamchi 分類の相関を明らかにする -

塚越祐太, 亀ヶ谷真琴, 鎌田浩史, 西須孝, 森田光明, 柿崎潤, 瀬川裕子, 都丸洋平, 中川将吾, 山崎正志

第 55 回日本小児股関節研究会 2016 年 6 月 岡山

リーメンビューゲル装着期間の検討 - 6 週と 3 カ月装着の比較 -

塚越祐太, 鎌田浩史, 亀ヶ谷真琴, 竹内亮子, 都丸洋平, 中川将吾, 西野衆文, 三島初, 山崎正志

第 31 回日本整形外科学会基礎学術集会 2016 年 10 月 福岡

先天性股関節脱臼整復後の 3D-MRI を用いた大腿骨頭真球性評価

塚越祐太, 鎌田浩史, 竹内亮子, 中川将吾, 都丸洋平, 三島初, 西野衆文, 岡本嘉一, 亀ヶ谷真琴, 山崎正志

第 27 回日本小児整形外科学会学術集会 2016 年 12 月 仙台

6 歳時に CE 角 15° 未満であった脱臼歴のない臼蓋形成不全の自然経過

塚越祐太, 鎌田浩史, 亀ヶ谷真琴, 竹内亮子, 都丸洋平, 中川将吾, 西野衆文, 山崎正志

第 27 回関東小児整形外科研究会 2017 年 2 月 東京

先天性筋性斜頸の治療経験

道信龍平, 塚越祐太, 鎌田浩史, 都丸洋平, 中川将吾, 田中健太, 山崎正志

American Academy of Orthopaedic Surgeons 2017 annual meeting. March 2017 San Diego  
3D-MRI analysis of femoral head remodeling after reduction in developmental dysplasia of the hip

Yuta Tsukagoshi, Hiroshi Kamada, Ryoko Abe, Shogo Nakagawa, Yohei Tomaru, Kenta Tanaka, Tomofumi Nishino, Hajime Mishima, Yoshikazu Okamoto, Makoto Kamegaya, Masashi Yamazaki

第 90 回日本整形外科学会学術総会 2017 年 5 月 仙台

6 歳時に CE 角 15° 未満であった脱臼歴のない臼蓋形成不全の自然経過

塚越祐太, 鎌田浩史, 亀ヶ谷真琴, 竹内亮子, 都丸洋平, 中川将吾, 西野衆文, 山崎正志

第 90 回日本整形外科学会学術総会 2017 年 5 月 仙台

3D-MRI を用いた先天性股関節脱臼における脱臼整復前後の大腿骨頭軟骨のリモデリング評価

塚越祐太, 鎌田浩史, 竹内亮子, 中川将吾, 都丸洋平, 田中健太, 西野衆文, 三島初, 岡本嘉一, 亀ヶ谷真琴, 山崎正志

第 55 回日本小児股関節研究会 2017 年 6 月 大阪

骨頭壊死を生じた先天性股関節脱臼の幼児期 3D-MRI を用いた大腿骨頭形態評価

塚越祐太, 鎌田浩史, 竹内亮子, 中川将吾, 都丸洋平, 西野衆文, 亀ヶ谷真琴, 山崎正志

第 55 回日本小児股関節研究会 2017 年 6 月 大阪

幼児期に見られる臼蓋荷重面硬化像 (sourcil) による成長終了時臼蓋形態の予後予測

村上真慧, 塚越祐太, 鎌田浩史, 亀ヶ谷真琴, 都丸洋平, 中川将吾, 西野衆文, 山崎正志

第 32 回日本整形外科学会基礎学術集会 2017 年 10 月 沖縄

骨頭壊死を生じた先天性股関節脱臼の幼児期 3D-MRI を用いた大腿骨頭形態評価

塚越祐太, 鎌田浩史, 竹内亮子, 中川将吾, 都丸洋平, 西野衆文, 亀ヶ谷真琴, 山崎正志

第 28 回日本小児整形外科学会学術集会 2017 年 12 月 東京

大腿骨頭壊死を生じた大腿骨頭すべり症の再手術時に術中 MRI が有用であった 2 症例

大西美緒, 塚越祐太, 鎌田浩史, 都丸洋平, 中川将吾, 山崎正志

第 28 回日本小児整形外科学会学術集会 2017 年 12 月 東京

MRI による関節唇に着目した発育性股関節形成不全の幼児期股関節発育の解析

塚越祐太, 鎌田浩史, 亀ヶ谷真琴, 都丸洋平, 中川将吾, 竹内亮子, 大西美緒, 西野衆文,  
山崎正志

## 原著論文

Bone and Joint Journal, 2017;99B(8):1115-20.

The correlation between Salter's criteria for avascular necrosis of the femoral head and Kalamchi's prognostic classification following the treatment of developmental dysplasia of the hip

Y. Tsukagoshi, M. Kamegaya, H. Kamada, T. Saisu, M. Morita, J. Kakizaki, Y. Tomaru, M. Yamazaki

Journal of Pediatric Orthopaedics B, 2017(Epub ahead of print)

Three-dimensional MRI analyses of pre-reduced femoral head sphericity in patients with developmental dysplasia of the hip after Pavlik harness failure

Y. Tsukagoshi, H. Kamada, R. Takeuchi, S. Nakagawa, Y. Tomaru, M. Kamegaya, T. Nishino, Y. Okamoto, H. Mishima, M. Yamazaki

日本小児整形外科学会雑誌, 2017, 26(1):152-155

発育性股関節形成不全(脱臼)に対するリーメンビューゲル装着期間の検討 ―6週間と3カ月間装着の比較―

塚越祐太, 鎌田浩史, 亀ヶ谷真琴, 竹内亮子, 都丸洋平, 中川将吾, 西野衆文, 三島初, 山崎正志

日本小児整形外科学会雑誌, 2017, 26(2):285-288

6歳時にCE角15°未満であった脱臼歴のない臼蓋形成不全の自然経過

塚越祐太, 鎌田浩史, 亀ヶ谷真琴, 竹内亮子, 都丸洋平, 中川将吾, 大西美緒, 西野衆文, 山崎正志

## 謝辞

本論文の作成にあたり、御校閲を賜りました筑波大学医学医療系整形外科 山崎正志教授に厚く御礼申し上げます。また、筑波大学医学医療系整形外科 鎌田浩史講師、千葉こどもとおとなの整形外科 亀ヶ谷真琴院長のご指導に心から感謝いたします。研究を進めるにあたり多大な協力をいただいた筑波大学大学院 都丸洋平先生、中川将吾先生に感謝いたします。



## 参 考 論 文